



Journal of

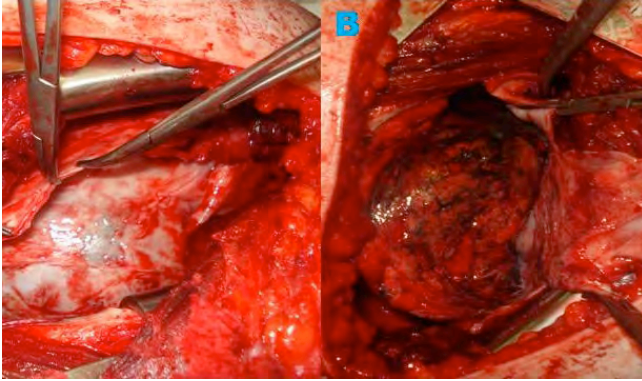
Clinical and Analytical Medicine

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi

Vol: 4 Supplement 5 October 2013

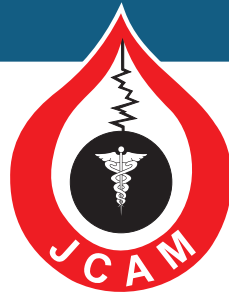
Bilateral Anterior Rectus Sheath Turnover Flap for Abdominal Closure

Kaya B



Contents;

- A Case of Takayasu's Arteritis Presenting with Acute Stroke
- Semiinvasive Aspergillosis Case Coexisting to Metastatic Renal Cell Cancer
- Primary Tuberculosis Osteomyelitis of Rib
- Tandoor Heat Related Symmetric Squamous Cell Carcinoma: Case Report
- Mucopolysaccharidosis VI (Case Report) Brain MRI and MR Spectroscopy Findings
- Giant Mediastinal Cystic Teratoma Involving Pancreatic Tissue and Showing Rapid Development
- Optic Neuropathy Secondary to an Onodi Cell Mucocoele in a Child
- A Case of Severe Mercury Intoxication with Unknown Source
- Association of Hepatic Hydatid Cyst Disease and Liver Tuberculosis
- Multicystic Nephroma in Elderly: A Case Report
- A Case of Hidroacanthoma Simplex Mimicking Bowen's Disease
- Ascending to Descending Aortic Bypass: Repair Via Median Sternotomy on the Beating Heart
- Anatomic Repair of Right Aortic Arch, Kommerell's Diverticula and Aberrant Left Subclavian Artery Complex



Journal of

Clinical and Analytical Medicine

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi

Vol: 4 Supplement 5 October 2013

DERGİ

Journal of Clinical and Analytical Medicine

(Kısa Başlık: J Clin Anal Med)

Kartaltepe Mahallesi, Atatürk Bulvarı, Belediye İşhanı, No: 9/9, Bala, Ankara, Türkiye.
GSM: +905303042583 • F.: +90 3128761089 • www.jcam.com.tr • info@jcam.com.tr

Yayıncı

Derman Tıbbi Yayıncılık

Kartaltepe Mh. Atatürk Cd. No: 9/9,
Bala, Ankara, Türkiye.
T.: +90 3128761089
E-posta: info@jcam.com.tr

Editör

Orhan Yücel

GATA Göğüs Cerrahisi. AD.
06118, Etlik, Ankara.
T.: +905303042583
E-posta: editor@jcam.com.tr

Sekreter

Ülker Bora, Jim Morgan

Kartaltepe Mh, Atatürk Cad.
No: 9/9, Bala, Ankara.
T.: +90 3123045188
E-posta: secretary@jcam.com.tr

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi, tıbbın her dalı ile ilgili retrospektif, prospektif veya deneysel çalışmaları, ilginç olgu bildirimlerini, davet üzerine yazılan derlemeleri, editöre mektupları, orijinal görüntüleri, kongre, kurs, seminer, haber ve duyuruları, ilginç araştırmaların özetlerini ve güncel tıp gündemindeki konuları yayınlar. Yayıncılar, reklamı verilen ticari ürünlerin açıklamaları konusunda hiçbir garanti vermemekte ve konuyla ilgili sorumluluk kabul etmemektedir. Dergi yılda 6 sayı olarak Ocak, Mart, Mayıs, Temmuz, Eylül ve Kasım aylarında yayınlanmaktadır. Yazıların bilimsel sorumluluğu yazarlara aittir.

Journal of Clinical and Analytical Medicine publishes every branch of medicine concerned with the retrospective, prospective or experimental studies, interesting case reports, invited reviews, letters to the editor, original images, congress, course, seminar, news item and declaration, brief reports on original studies, and current medical issues in the agenda. Publishers do not give any guarantees about description of the commercial product and do not accept responsibility for the subject. The journal is published six times in a year and in January, March, May, July, September ve November. The author(s) undertake(s) all scientific responsibility for the manuscript.

JCAM İndekslediği Dizinler / Indexes

Embase; Index DOAJ, EMBASE, SCOPUS, Index Copernicus, Pleksus Medline, TÜBİTAK ULAKBİM, Türkiye Atıf Dizini

Matbaa/Yayınevi/Satış/Dağıtım: Derman Tıbbi Yayıncılık, Kartaltepe Mah, Atatürk Cad, No: 9/9, Bala, Ankara, Türkiye. T.: +90 3128761089 • F.: +90 3128761089 • E-Mail: info@jcam.com.tr • Basım Tarihi/Press Data: 01.11.2013

**Editör / Editor**

Orhan Yücel, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

Bölüm Editörleri / Section Editors

Ali Sızlan, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Fatih Zor**, Plastic Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Hakan Şimşek**, Neurosurgery, Kasımpaşa Military Hospital, İstanbul, Turkey, **Mustafa Burak Hoşcan**, Urology, Başkent University Faculty of Medicine, Antalya, Turkey

Yardımcı Editörler / Associate Editors

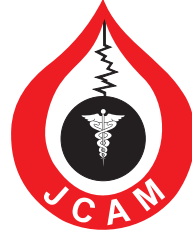
Akın Yıldızhan, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, **Burçin Çelik**, Thoracic Surgery, 19 Mayıs University Medical School, Samsun, Turkey, **Didem Sonbay**, Otolaryngology, Antalya Selale Private Medical Center, Antalya, Turkey, **Mürüvvet Seda Balaban**, Hacettepe University Faculty of Medicine, Department of Internal Medicine, Ankara, Turkey, **Oğuzhan Okutan**, Pulmonary Medicine, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, **Ömer Gökhan Doluoğlu**, Urology, Ankara Numune Education and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Sezai Çubuk**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

Uluslararası Danışma Kurulu / International Editorial Board

Abramson Horacio, Thoracic Surgery, Universidad de Buenos Aires Buenos Aires, Argentina, **Carla Lamb**, Pulmonology, Critical Care Medicine, Lahey Clinic, Burlington, USA, **Frank-Martin Haecker**, Pediatric Surgery, University Children's Hospital, Basel, **Hans K. Pilegaard**, Cardiothoracic Surgery, Aarhus University Hospital, Denmark, **Hayati Bilgiç**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Hyung Joo Park**, Thoracic and Cardiovascular Surgery, Korea University Medical Center, Korea, **Onur Genç**, Turkish Religious Foundation 29 Mayıs Private Hospital, Ankara, Turkey, **Peter Goldstraw**, Thoracic Surgery, National Heart and Lung Institute, Imperial College, London, UK, **Richard W. Light**, Pulmonary Disease, and Critical Care Med., Vanderbilt University, Tennessee, USA, **Semra Bilaçeroğlu**, Pulmonary Medicine, Izmir Training and Research Hospital for Thoracic Medicine and Surgery, Turkey, **Shahinur Rahman**, Thoracic Surgery, Combined Military Hospital, Dhaka, Bangladesh, **Yoshiya Toyoda**, Cardiothoracic Surgery, University of Pittsburgh Physicians, Pittsburgh, USA, **Yusuf Peker**, General Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

Danışma Kurul / Editorial Board

Ali Kılıçgün, Thoracic Surgery, Abant İzzet Baysal University Faculty of Medicine, Bolu, Turkey, **Alper Gözübüyük**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ayşe Eken**, Pharmaceutical Toxicology, Erciyes University, Pharmacy Faculty, Kayseri, Turkey, **Basar Sareyyupoglu**, Cardiothoracic Surgery, TAMHSC College of Medicine, Texas, USA, **Bülent Karaman**, Radiology, Gulhane Military Medical School, Ankara, Turkey, **Cantürk Taşçı**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Celalettin Sever**, Plastic Surgery, Gulhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, **Ergün Tozkoparan**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ergün Uçar**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Erkan Vuralkan**, Otolaryngology, Yıldırım Beyazıt Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, **Hasan Çaylak**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **İbrahim Yetim**, General Surgery, Mustafa Kemal University, Faculty of Medicine, Hatay, Turkey, **Makbule Ergin**, Thoracic Surgery, Gaziosmanpaşa University School of Medicine, Tokat, Turkey, **Mehmet Dakak**, Thoracic Surgery, TOBB ETÜ Hospital, Ankara, Turkey, **Mehmet Gamsızkan**, Pathology, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Mehmet Zeki Günlüoğlu**, Thoracic Surgery, İstanbul Medipol University, Medical Faculty, İstanbul, Turkey, **Muharrem Erol**, Thoracic Surgery, Bursa University Faculty of Medicine, Bursa, Turkey, **Mustafa Tansel Kendirli**, Neurology, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, **Murat Tavlaşoğlu**, Cardiovascular Surgery, Diyarbakir Military Medical Hospital, Diyarbakir, Turkey, **Murat Ünlü**, Cardiology, Beytepe Military Hospital, Ankara, Turkey, **Nazif Zeybek**, General Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ömer Deniz**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Pınar Bıçakcıoğlu**, Thoracic Surgery, Atatürk TRH for Chest Disease and Chest Surgery, Ankara, Turkey, **Sait Demirkol**, Cardiology, School of Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Sedat Gürkök**, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Selahattin Bedir**, Urology, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Seyfettin Gümüş**, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Ülkü Yazıcı**, Thoracic Surgery, Atatürk Chest Diseases and Chest Surgery ERH, Ankara, Turkey, **Yusuf Sinan Şirin**, Surgery, Faculty of Veterinary Medicine, Ankara University, Ankara, Turkey, **Zekeriya Arslan**, Cardiology, School of Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, **Zeki İlker Kunak**, Medical CBRN Defense, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey



İçindekiler (Table of Contents)

Olgu Sunumu / Case Report

461-463	Sklerodermalı Bir Olguda Spinal Anestezi Uygulaması Spinal Anesthesia in a Patient with Scleroderma Fatih Şimşek, Umut Kara, Süleyman Deniz
464-466	Akut İnme ile Prezente olan Genç Takayasu Arteriti Olgusu A Case of Takayasu's Arteritis Presenting with Acute Stroke ArteritisTuba Akdağ, Onur Ergun, İdil Güneş Tatar, Hasan Ali Durmaz, Baki Hekimoğlu
467-469	İkizlerde Fleksör Pollicis Longus Tendonunun İleri Derecede Hipoplazisi Advanced Hypoplasia of the Flexor Pollicis Longus Tendon in Twins Nazan Sivrioğlu, Özüm Tunçyürek
470-472	Perkutan Nefrolitotomi Sonrasında Cilt Altı Değişici Hücreli Kanseri: Olgu Sunumu Subcutaneous Transitional Cell Cancer After Percutaneous Nephrolithotomy: A Case Report Lokman İrkilata, Ekrem Akdeniz, İrfan Atay, İpek Işık Gönül, Mustafa Kemal Atilla
473-475	Renal Hücreli Karsinom Metastazına Eşlik Eden Semiinvaziv Aspergillozis Olgusu Semiinvasive Aspergillosis Case Coexisting to Metastatic Renal Cell Cancer Hatice Kılıç, Ayşegül Şentürk, Ayşegül Karalezli, H. Canan Hasanoğlu, Hayriye Tatlı
476-481	Sigmoid Kolon Kanserli Bir Hastada Tespit Edilen Leuconostoc Spp. Bakteriyemisi Leuconostoc Spp. Bacteremia in a Patient with Sigmoid Colon Cancer Havva Avcıküçük, Serap Süzük, Cem Gençay, Harun Mıkçı
482-484	İnkarsere İnguinal Herni Kesesi İçinde İnmemiş Testis: Olgu Sunumu Undescended Testis Located in Incarcerated Inguinal Hernia: Case Report Eyüp Murat Yılmaz, Harun Arslan, Edip Gönüllü
485-487	Kaburganın Primer Tüberküloz Osteomyeliti Primary Tuberculosis Osteomyelitis of Rib SurgeryMurat Oncel, Guven Sadi Sunam, Huseyin Yildiran, Ilknur Kucukosmanoglu
488-490	Uyanık Fiberoptik Nasotrakeal Entübasyonda Deksmetomidin Kullanımı: Olgu Sunumu Dexmedetomidine Use for Awake Nasotracheal Fiberoptic Intubation: A Case Report Dilek Günay Canpolat, Mustafa Denizhan Yıldırım, Fatma Doğruel
491-493	Olgu Sunumu: Kalsifik Aort Kapak Stenozuna Bağlı Gelişen Santral Retinal Arter Tıkanıklığı Case Report: Calcific Aortic Valve Stenosis Due to Central Retinal Artery Occlusion Ender Şener, Özdemir Özdemir
494-496	Alt Dudakta Anjiyoleiomyom: Olgu Sunumu Oral Angioleiomyoma of the Lower Lip: A Case Report İbrahim Damlar, Halil İbrahim Kısa, Ufuk Tatlı, Ahmet Altan, Sibel Hakverdi
497-499	Tandır Sıcağı İle İlişkili Simetrik Skuamoz Hücreli Karsinom: Vaka Sunumu Tandoor Heat Related Symmetric Squamous Cell Carcinoma: Case Report Hatice Uce Özkol, Ömer Çalka, Göktürk Dere, İrfan Bayram
500-502	İşeme Bozukluğuna Sebep Olan Nadir Bir Durum: Mesanenin İnguinal Kanala Herniasyonu An Unusual Situation Causing Voiding Dysfunction: Inguinal Herniation of the Bladder Sadi Turkan, Yeşim Üçkurt, Mehmet Kalkan, Coşkun Şahin
503-505	Gerçek Timik Hiperplazinin Tanı ve Yönetimi; İki Kız Kardeşteki Olgularla Tanımlama Diagnosis and Management of True Thymic Hyperplasia; Description with Cases in Two Sisters Koray Aydoğan, Göktürk Fındık, Funda İncekara, Furkan Şahin, Funda Demirağ, Sadi Kaya
506-508	Bilateral Ön Rektus Kas Kılıfı Turnover Flep Yöntemi ile Karın Kapama Bilateral Anterior Rectus Sheath Turnover Flap for Abdominal Closure Bulent Kaya
509-511	Mukopolisakkaridoz VI (Olgu Sunumu) Beyin MRG ve MR Spektroskopi Bulguları Mucopolysaccharidosis VI (Case Report) Brain MRI and MR Spectroscopy Findings Fuldem Yıldırım Donmez, Hulya Aslan
512-514	Kist Hidatiği Taklit Eden Akciğer Kanseri: Olgu Sunumu Lung Carcinoma Mimicking Hydatid Cyst: A Case Report Nuri Düzgün, Hıdır Esme, Ferdane Melike Duran, Ercan Kurtipek
515-517	Adneksiyel Maligniteyi Taklit Eden İntramüsküler Hemanjiyom Intramuscular Hemangioma Mimicking an Adnexal Malignancy Selen Doğan, Tayfun Toptaş, İnanç Elif Gürer, Tayup Şimşek
518-520	Dört Parçalı Tibia Kırığında Proksimal ve Distal Minimal İnvaziv Tespit: Olgu Sunumu Proximal and Distal Minimally Invasive Plate Osteosynthesis of Four-Piece Tibial Fracture: Case Report Murat Gürger, Ömer Cihan Batur, Suat Çelik
521-523	Hızlı Büyüme Gösteren, Pankreas Dokusu İçeren Dev Mediastinal Kistik Teratom Giant Mediastinal Cystic Teratoma Involving Pancreatic Tissue and Showing Rapid Development Şamil Günay, Sabahattin Aslan, Tuncer Şenol, İrfan Eser, Özgül Vurupalmaz
524-526	Primer Gliosarkom: İki Vaka Sunumu ve Literatürün Gözden Geçirilmesi Primary Gliosarcoma: Two Case Reports and Revision of the Literature Vildan Kaya, Mustafa Yıldırım, Ayşen Yeşim Yalçın, Ethem Göksu, Elif İnanç Gürer
527-529	Bir Çocukta Onodi Hücreli Mukosele İkincil Oluşan Optik Nöropati Optic Neuropathy Secondary to an Onodi Cell Mucocele in a Child Emine Cincici, Hasan Kahveci, Arzu Tatar, İbrahim Kocer
530-532	Penetran Kardiyak ve Hepatik Yaralanma; Bombalama Sonrası Politravmalı Çocuk Olgu Penetrating Cardiac and Hepatic Injury; Polytrauma of a Child After Bombing Barış Akça, Mustafa Tuşat

533-535	Kaynağı Bilinmeyen Şiddetli Bir Civa İntoksikasyon Vakası A Case of Severe Mercury Intoxication with Unknown Source Meşide Gündüzöz, Ceylan Bal, Murat Büyükşekerci, Özge Han, Engin Tutkun
536-538	Kırmızı Adam Sendromu: Olgu Sunumu A Case with Red Man's Syndrome Onur Gürer, Sertaç Çelikel
539-541	Nadir Bir Olgu Sunumu: Mesanenin Plazmasitoid Ürotelyal Karsinomu A Rare Case Report: Plasmacytoid Urothelial Carcinoma of the Urinary Bladder Mehmet Karabakan, Serkan Akdemir, Alp Özgür Akdemir, Özer Güzel, Aysel Çolak
542-544	Karaciğerde Yabancı Cisim: Dikiş İğnesi Foreign Body in the Liver: Sewing Needle PerforationYeliz Aktürk, Okan Murat Aktürk, Serra Özbal Güneş, Baki Hekimoğlu
545-547	Karaciğer Kist Hidatik Hastalığı ve Karaciğer Tüberkülozu Birlikteliği Association of Hepatic Hydatid Cyst Disease and Liver Tuberculosis Songül Özyurt, Halit Çınarka, Mevlüt Karataş, Recep Bedir, Ünal Şahin
548-549	Düşük Doz Ziprasidona Bağlı Akut Distoni; Olgu Sunumu Low-Dose of Ziprasidone Induced Acute Dystonia: A Case Report Kadir Demirci, Seden Demirci, Mesut Yıldız
550-552	Membranöz Septal Anevrizma: cTGA'da Subpulmoner Obstrüksiyonun Nadir Bir Nedeni Membranous Septal Aneurysm: An Unusual Case for Sub-Pulmonary Obstruction in cTGA Onur Işık, Tolga Baş, Murat Koç, Hakan Aydın, Ali Kutsal
553-555	Erişkinde Multikistik Nefroma: Bir Olgu Sunumu Multicystic Nephroma in Elderly: A Case Report Ediz Vuruşkan, Adem Altunkol, Hakan Erçil, Pelin Demirtürk, Nevzat Can Şener
556-558	İris Mammillasyonunun Eşlik Ettiği Ota Nevüs Olgusu A Case of Iris Mammillation Associated with Nevus of Ota Onur Polat, Pınar Özüğüz, Seval Doğruk Kaçar
559-561	Bowen Hastalığını Taklit Eden Hidroakantoma Simpleks Olgusu A Case of Hydroacanthoma Simplex Mimicking Bowen's Disease Pınar Özüğüz, Seval Doğruk Kaçar, Serap Polat, İlyas Özardalı, Betül Demirciler Yavaş
562-564	Doğuştan Görme Kaybı Olan İki Kardeşte Otistik Spektrum Bozukluğu: Olgu Sunumu Autistic Spectrum Disorder in Two Brothers with Congenital Visual Impairment: A Case Report Hatice Altun, Ebru Fındıklı, Lokman Aslan
565-567	Sağ Aortik Ark, Kommerell Divertikülü ve Aberran Sol Subklaviyan Arter Birlikteliğinde Anatomik Tamir Anatomic Repair of Right Aortic Arch, Kommerell's Diverticula and Aberrant Left Subclavian Artery Complex Onur Işık, Muhammet Akyüz, Mehmet Fatih Ayık, Yüksel Atay
568-570	Asendan Desendan Aortic Bypass:Atan Kalpte Mediyan Sternotomi Yoluyla Onarım Ascending to Descending Aortic Bypass: Repair Via Median Sternotomy on the Beating Heart Muhammet Akyuz, Onur Işık, Mehmet Fatih Ayık, Yüksel Atay



Spinal Anesthesia in a Patient with Scleroderma

Sklerodermalı Bir Olguda Spinal Anestezi Uygulaması

Kaşektik Sklerodermalıda Anestezi / Anesthesia in Cachectic Scleroderma

Fatih Şimşek¹, Umut Kara², Süleyman Deniz³

¹Ardahan Asker Hastanesi, Anesteziyoloji ve Reanimasyon Servisi, Ardahan,

²GATA Anesteziyoloji ve Reanimasyon A.D., Ankara,

³GATA Haydarpaşa Eğitim Hastanesi, Anesteziyoloji ve Reanimasyon Servisi, İstanbul, Türkiye

Özet

Skleroderma, etyolojisi belli olmayan, patogeneğinde immünolojik mekanizmaların aktivasyonu ile beraber artmış fibroblast proliferasyonu ve kollajenin cilt ve iç organlarda aşırı yapımı ve birikimi ile karakterize, multisistemik bir bağ dokusu hastalığıdır. Hastalarda sistemlerin tutulumu sonucu meydana gelen fonksiyonel bozukluklara bağlı anestezi uygulaması ile ilgili birçok potansiyel sorunlar yaşanabilmektedir. Bu nedenle sistemik tutulumların en iyi şekilde ortaya konarak uygulanacak anestezi yönetimi ve ilaç seçiminin en uygun şekilde yapılması son derece önemlidir. Anestezi yönetiminde dikkatli bir preoperatif değerlendirme şarttır. Bu yazıda, üretral polip eksizyonu yapılacak skleroderma tanısı olan kaşektik 60 yaşındaki bayan hastadaki spinal anestezi uygulamamız literatür bilgileri eşliğinde tartışılacaktır.

Anahtar Kelimeler

Skleroderma; Spinal; Anestezi

Abstract

Scleroderma, a multisystem connective tissue disease and etiology is still unclear. In the pathogenesis, it is characterized by increased fibroblast proliferation with activation of immunological mechanisms and accumulation of collagen in the skin and internal organs. Patients might have anesthesia-related potential problems because many systems affected and have functional disorders due to accumulation of collagen. For this reason, anesthetic management is extremely important. A careful preoperative evaluation is essential. In this article, we will discuss in the light of the literature a cachectic 60-year-old female patient who had urethral polyp excision with scleroderma applied spinal anesthesia.

Keywords

Scleroderma; Spinal; Anesthesia

DOI: 10.4328/JCAM.2527

Received: 30.04.2014

Accepted: 13.05.2014

Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 461-3

Corresponding Author: Suleyman Deniz, Gulhane Military Medical Academy, Haydarpaşa Training Hospital, Department of Anesthesiology, Istanbul, Turkey.

GSM: +905366542540 F.:+90 3123045900 E-Mail: sdeniz.md@gmail.com

Giriş

Skleroderma veya diğer bir ifadeyle progresif sistemik sklerozis, etyolojisi belli olmayan, patogeneğinde kollajenin cilt ve iç organlarda aşırı yapımı ve birikimi, immünolojik mekanizmaların aktivasyonu ile beraber artmış fibroblast proliferasyonu ile karakterize, multisistemik bir bağ dokusu hastalığıdır. Kadınlarda erkeklere oranla 3 kat daha fazla görülmekle birlikte insidansı 1:1000000 olarak bildirilmiş nadir bir hastalıktır [1].

Sıklıkla bu hastalıkta cilt, akciğer, kalp, gastrointes-tinal sistem ve böbrekler tutulmaktadır. Bu sistemlerin tutulmasına bağlı meydana gelen ciltte kalınlaşma, restriktif akciğer hastalıkları, kutanöz kalsifikasyonlar, pulmoner hipertansiyona bağlı konjestif kalp yetmezliği, ileti bozuklukları, miyokardit ve alt özofagus sfinkter dilatasyonu gibi sebepler mortaliteye neden olabilmektedir. Gastrointestinal sistem tutulumu beslenmeyi etkileyerek malnütrisyona ve kaşeksiye, akciğer tutulumu pulmoner hipertansiyona ve sağ kalp yetmezliğine neden olabilmektedir [1]. Hastalarda sistemlerin tutulumu sonucu meydana gelen fonksiyonel bozukluklara bağlı anestezi uygulaması ile ilgili birçok potansiyel sorunlar yaşanabilmektedir [2]. Bu nedenle sistemik tutulumların en iyi şekilde ortaya konarak uygulanacak anestezi yönetimi ve ilaç seçiminin en uygun şekilde yapılması son derece önemlidir. Anestezi yönetiminde dikkatli bir preoperatif değerlendirme şarttır ve özellikle ağız açıklığı, laringoskopi ve entübasyon güçlüğü, kardiyopulmoner değişiklikler, özofagus, bağırsaklar, böbrek, eklem ve cilt dejenerasyonlarının eşlik edip etmediği değerlendirilmelidir [3].

Burada sistemik skleroz tanısı ile takip edilen bir olgu anlatılarak anestezi uygulamasında dikkat edilecek noktaları hatırlatmayı amaçladık.

Olgu Sunumu

Kendisine ait verileri bu yazıda paylaşacağımızın onamını aldığımız 60 yaşındaki bayan hastaya üretral polip nedeniyle üroloji kliniği tarafından eksizyon operasyonu planlandı. Hastanın preoperatif değerlendirmesinde 22 yıldır skleroderma hastası olduğu ve ek hastalık olarak hipertansiyonunun bulunduğu tespit edildi. Sklerodermanın sistemik tutulumu açısından sistemlerin değerlendirilmesinde cilt balmumu kıvamında, cilt ve cilt altı doku incelmış olarak gözlemlendi. Kardiyovasküler sistem muayenesinde EKG’de herhangi bir patoloji saptanmazken ekokardiyo-grafik değerlendirmede, ejeksiyon fraksiyonu % 68, pulmoner arter basıncı normal, 1. derece aort ve mitral yetmezlik tespit edildi. Bilateral akciğer solunum sesleri azalmış olan hastanın çekilen akciğer grafisinde bilateral akciğer bazallerinde fibrotik değişiklikler tespit edildi ve hastanın minimal düzeyde solunum sıkıntısı mevcuttu. Renal tutulum açısından incelenen hastada minimal düzeyde üre ve ürik asit yüksekliği mevcuttu. Ayrıca 45 kg olan hastanın kaşeksi ve eklem tutulumlarına bağlı hareket kısıtlılığı mevcuttu. Havayolu yönetimi açısından değerlendirilen hastada ağız açıklığı: 3 cm altında, tiromental ve sternomen-tal mesafeler normal sınırlarda, boyun hareketleri normal ve mallampati skorlaması ≥ 2 olarak değerlendirildi. Hemo-gram ve biyokimyasal değerleri normal sınırlarda idi. Hastanın kaşektik yapısı, kardiyak ve pulmoner tutulumu ve havayolu kontrolünün zorluğu genel anestezi işleminin yüksek riskli olacağını düşündürdü. Bu sebeplerle hastaya spinal anestezi uygulanması planlandı.

Operasyondan 30 dakika önce prehidrasyon için 10 ml kg-1 % 0,9’lik NaCl intravenöz yoldan verildi. Takiben salona alınan hastada periferik oksijen satürasyonu, noninvaziv arter basıncı ve 3 derivasyonlu EKG monitörizasyonu uygulandı. Oturur pozisyonunda L4-5 seviyesinden 25 numara spinal iğne kullanılarak intratekal aralığa ikinci denemede girilerek serbest BOS akışı gözlemlendi. Daha sonra % 0,5’lik hiperbarik bupivakain 2 ml (10 mg) subaraknoid aralığa verildi. Duyusal blok seviyesi pinprick testi ile kontrol edildi. Enjeksiyondan 5 dk sonra T10 seviyesinde duyusal blok elde edildi. Müteakiben başlayan ve yaklaşık 40 dk süren ameliyatta herhangi bir komplikasyonla karşılaşılma-dı. Operasyon sonrası ameliyat sonrası bakım ünitesine alınan hastada blok süresinde uzama ile karşılaşılma-mış ve 3 saat sonra sorunsuz bir şekilde kliniğine gönderilmişti. Hasta postoperatif 2. gün taburcu edildi.

Tartışma

Sklerodermalı hastaların yaklaşık % 67’sinde bronş epitelinde proliferasyon, interstisyel ve peribronşiyal fibrozis ve pulmoner düz kaslarındaki hipert-rofiye bağlı pulmoner hipertansiyon akciğerlerde görülen başlıca değişikliklerdir [4,5]. Alt özofageal sfinkter gevşemesi sonucu aspirasyon pnömonisi de sıklıkla gelişebilen önemli bir sorundur. Bu durumlar özellikle genel anesteziyi mortalite ve morbidite açısından riskli kılmaktadır [4,5].

Sklerodermada % 65 oranında gözlenebilen kardiyovasküler tutulum ventriküler disfonksiyon ve aritmilere sebep olan miyokard iskemisi, fibrozis ve basınç artışı gibi bulgularla kendini gösterir [6].

Sklerodermalı hastalarda en önemli hedef organlardan biri de böbreklerdir. Tutuluma bağlı olarak zamanla renal fonksiyon-larda azalma, proteinüri, kreatinin değerinde yükselme, idrar çıkışında azalma ve hipertansiyon oluşur [7].

Sklerodermada tutulan bir diğer sistem de gastrointestinal sistemdir ve motilite, sindirim, emilim ve boşaltım yetmezliklerini içeren birçok problemle karşılaşılabilir. Tutulumun şiddetine bağlı olarak disfaji, kusma, ishal ve konstipasyon gibi sebeplerle ciddi kilo kayıpları meydana gelebilmektedir. Bunun yanında gastrointestinal sistem tutulumu olan hastalarda oluşabilecek malabsorbsiyon sendromları K vitamini emilimini bozarak pıhtılaşma anormalliklerine yol açabilir [8]. Olgumuzda beslenme problemlerine bağlı oluşan kaşeksi gastrointestinal sistem tutulumunun en tipik bulgusuydu. Koagülasyon parametreleri normal sınırlarda olan hasta da rejyonal anestezi açısından koagülopatiye bağlı kontrendike bir durum yoktu.

Sklerodermalı hastalarda cilt ve eklemlerde meydana gelen değişikliklere bağlı olarak entübasyon, periferik/santral damar yolu açılması ve uygun cerrahi pozisyon verilmesi esnasında problemler ile karşılaşılabilir [3]. Sklerodermalı hastalarda cilt tutulumuna bağlı ağız açıklığında sıkıntılar meydana gelebilmekte ve buna bağlı olarak entübasyonla ilgili problemlerle karşılaşılabilir [9]. Ayrıca laringoskopi ve endotrakeal tübün yerleştirilmesi sırasında ağız içi mukozası kolayca travmatize olarak kanamalar oluşabilir [3,9].

Sklerodermalı hastalarda uygulanan rejyonal anestezi ve sinir bloklarında periferik damarlar üzerine olan etkiye bağlı olarak uzamış duyusal ve motor blok görülebilmektedir. Dolayısıyla bu hastalarda lokal anestetik ilaçların küçük dozlarda tercih edilm-

esi gerektiği bildirilmiştir [10].

Uygun vakalarda rejyonal anestezinin sklerodermalı hastalarda genel anestezi ve entübasyonla ilgili problemlere karşı etkin bir yaklaşım olduğu, hastaların uyanık kalmalarının avantaj olarak değerlendirildiği ve ameliyat sonrası ağrı kontrolü sağlaması için güvenle uygulanabileceği savunulmaktadır [11]. Ancak güvenli bir yaklaşım olmadığını savunan çalışmalar da bulunmaktadır [12].

Olgumuzda ağız açıklığının kısıtlı olması, pulmoner tutulumun bulunması ve cerrahi bölgenin uygun olması nedeniyle ameliyat için spinal anestezi yöntemini tercih ettik. Spinal anestezik ilaç olarak hiperbarik bupivakain kullanılması ile analjezinin T8 seviyesinin üzerine çıkma riskini azaltarak kardiyak ve solunum fonksiyonlarının korunduğunu düşünmekteyiz [13]. Bununla birlikte olgumuzda lokal anestezik etki süresinde herhangi bir uzama görülmemiştir.

Sonuç

Sklerodermalı hastalarda anestezi tekniği seçimi ile ilgili kesin bir görüş birliği olmamasına rağmen hastanın klinik durumu, sistem tutulumlarının belirlenmesi, cerrahinin tipi ve süresi ile klinik tecrübe göz önüne alınarak karar verilmelidir. Dikkatli bir preoperatif değerlendirme yapılmasını müteakip mortalite ve morbiditeyi en aza indirmek için rejyonal anestezinin bu hasta grubunda iyi bir tercih olabileceği düşüncesindeyiz.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Gayed M, Gordon C. Pregnancy and rheumatic disease. Rheumatology (Oxford) 2007;46:1634-40.
2. Roberts JG, Sabar R, Gianoli JA, Kaye AD. Progressive systemic sclerosis: clinical manifestations and anesthetic considerations. J Clin Anesth 2002;14:474-7.
3. D'Eramo C, Zuccoli P, Monica M, Stocchetti N, Volta F, Scandellari R. Anesthesiologic management in scleroderma patients. Presentation of a clinical case. Acta Biomed Ateneo Parmense 1986;57:33-7.
4. Highland KB, Garin MC, Brown KK. The spectrum of scleroderma lung disease. Semin Respir Crit Care Med 2007;28:418-29.
5. Tekeoğlu İ, Hiz Ö, Özbay B, Toprak M, Avcu S. Pulmonary Involvement in Rheumatic Diseases: HRCT Findings. J Clin Anal Med 2011;2:36-9.
6. Sergiacomi G, De Nardo D, Capria A, Manenti G, Fabiano S, Borzi M, De Sanctis G, Konda D, Sperandio M, Schillaci O, Masala S, Simonetti G, Fontana L. Non-invasive diagnostic and functional evaluation of cardiac and pulmonary involvement in systemic sclerosis. In Vivo 2004;18:229-35.
7. Denton CP. Renal manifestations of systemic sclerosis: clinical features and outcome assessment. Rheumatology (Oxford) 2008;47 Suppl 5:54-6.
8. Forbes A, Marie I. Gastrointestinal complications: the most frequent internal complications of systemic sclerosis. Rheumatology (Oxford) 2009;48:36-9.
9. Roelofse JA, Shipton EA. Anaesthesia in connective tissue disorders. S Afr Med 1985;67:336-9.
10. McNamee DA, McClelland AM, Scott S, Milligan KR, Westman L, Gustafsson U. Spinal anaesthesia: comparison of plain ropivacaine 5 mg ml⁻¹ with bupivacaine 5 mg ml⁻¹ for major orthopaedic surgery. Br J Anaesth 2002;89:702-6.
11. Erk G, Taşpinar V, Dönmez F, Ornek D. Neuroaxial anesthesia in a patient with progressive systemic sclerosis: case presentation and review of the literature on systemic sclerosis. BMC Anesthesiol 2006;6:11.
12. Neill RS. Progressive systemic sclerosis. Prolonged sensory blockade following regional anaesthesia in association with a reduced response to systemic analgesics. Br J Anaesth 1980;52:623-5.
13. Hocking G, Wildsmith JA. Intrathecal drug spread. Br J Anaesth 2004;93:568-78.

How to cite this article:

Şimşek F, Kara U, Deniz S. Spinal Anesthesia in a Patient with Scleroderma. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 461-3.



A Case of Takayasu's Arteritis Presenting with Acute Stroke

Akut İnme ile Prezente olan Genç Takayasu Arteriti Olgusu

Olgu Sunumu / Case Report

Tuba Akdağ, Onur Ergun, İdil Güneş Tatar, Hasan Ali Durmaz, Baki Hekimoğlu
Dışkapı Yıldırım Beyazıt Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Radyoloji Kliniği, Ankara, Türkiye

Özet

Takayasu arteriti aort ve ana dallarını etkileyen kronik sistemik bir vaskülit olup hastaların akut inme ile prezente olması çok nadirdir. Biz bu yazıda genç bir kadında akut inme ile prezente olan Takayasu arteriti olgusunu, anjiyografi bulguları ve endovasküler tedavisi ile birlikte sunmayı amaçladık.

Anahtar Kelimeler

Endovasküler İşlemler; İnme; Takayasu Arteriti

Abstract

Takayasu's arteritis is a chronic systemic vasculitis that affects the aorta and its main branches. The first presentation of this disease with acute stroke is a very rare condition. We report a case of Takayasu's arteritis presenting with acute stroke in a young woman with its angiography findings and endovascular treatment.

Keywords

Endovascular Procedures; Stroke; Takayasu's Arteritis

DOI: 10.4328/JCAM.2524

Received: 30.04.2014 Accepted: 22.05.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 464-6

Corresponding Author: Onur Ergun, Dışkapı Yıldırım Beyazıt Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ankara, Türkiye.

T.: +90 3125962618 GSM: +905326954040 E-Mail: onurergun@yahoo.com

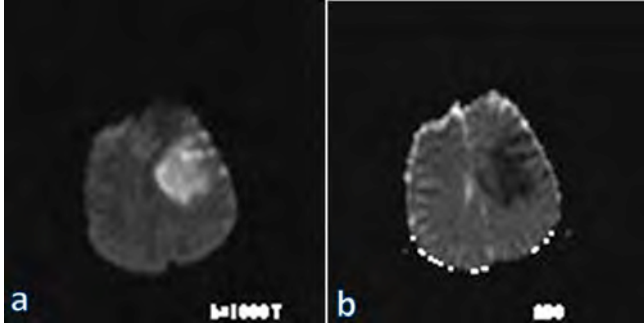
Giriş

Takayasu arteriti aort ve ana dallarını etkileyen, arteriyel duvarda kalınlaşma, fibrozis, stenoz, oklüzyon ve anevrizmalara neden olabilen sistemik tutulumlu kronik inflamatuvar bir vaskülitir [1]. Baş ağrısı ve vertigo en sık görülen nörolojik semptomlar olup hastaların akut inme ile prezente olması çok nadirdir.

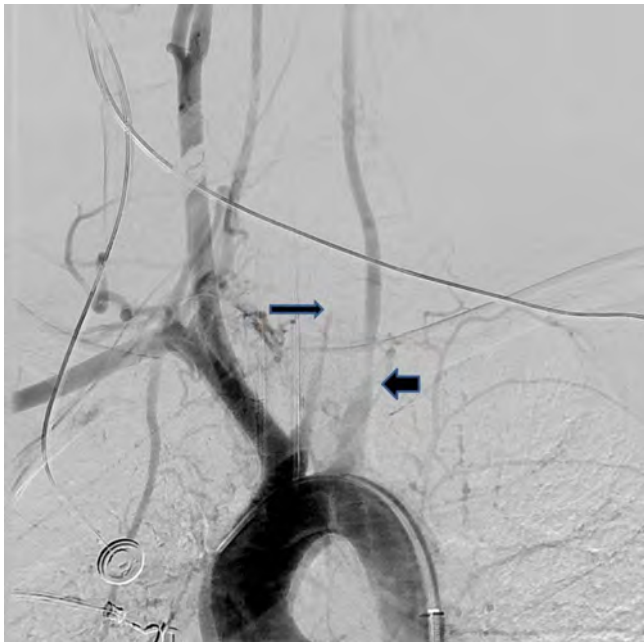
Olgu Sunumu

Bulantı, kusma ve bilinç bulanıklığı nedeniyle yakınları tarafından acil servise getirilen, gelişinde global afazik ve sağ hemiplejik olan 23 yaşındaki kadın hastaya difüzyon MRG (Resim 1) sonrası sol orta serebral arter enfarktı ön tanısı ile serebral anjiyografi yapıldı. Sol ana karotid arterin selektif kateterize edilememesi üzerine alınan arkus aortografide brakioyosefalik arter ile ortak kökten çıkan sol ana karotid arterin proksimalde incelenerek tam oklüzyon gösterdiği izlendi. Ayrıca sol subklaviyan arterin de sol vertebral arter çıkışı sonrası benzer şekilde incelenerek tam oklüzyon gösterdiği görüldü (Resim 2). Anjiyografi bulguları ile hastada Takayasu arteriti düşünüldü.

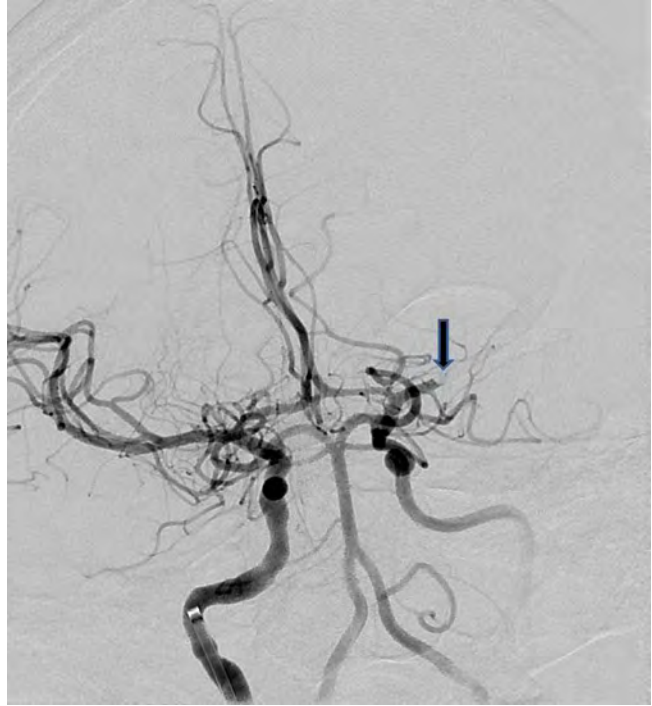
Bunun üzerine sağ internal karotid arter kateterize edildi ve alınan anjiyogramda sol ön ve orta serebral arterlerin patent anterior kominikan arter aracılığı ile sağ taraftan dolu gösterdiği görüldü. Sol orta serebral arterde orijinden 7 mm distalde total oklüzyon izlendi (Resim 3).



Resim 1. Difüzyon MRG' de difüzyon ağırlıklı görüntülerde (b=1000 sn/mm2) hiperintens (a), ADC harita görüntülerde hipointens (b) olarak görülen, sol orta serebral arter sulama alanına uyan akut enfarkt alanı izleniyor.



Resim 2. Arkus aortografide brakioyosefalik arter ile ortak kökten çıkan sol ana karotid arterin proksimal segmentte incelenerek tam oklüzyon gösterdiği izleniyor (ince ok). Ayrıca sol subklaviyan arterin de sol vertebral arter çıkışı sonrası benzer şekilde incelenerek tam oklüzyon gösterdiği görülmüyor (kalın ok).



Resim 3. Sağ internal karotid arter enjeksiyonunda sol ön ve orta serebral arterlerin patent anterior kominikan arter aracılığı ile sağ taraftan dolu gösterdiği izleniyor ve sol orta serebral arterde orijinden 7 mm distalde total oklüzyon görülmüyor (ok). Bilateral posterior kominikan arterlerin de patent olduğu izleniyor.

Sağ internal karotid artere kılavuz kateter yerleştirilmesini takiben mikrokateter ve mikrotel yardımı ile anterior kominikan arter aracılığı ile sağ taraftan sol tarafa geçildi ve sol orta serebral artere oklüzyon proksimaline yerleştirilen mikrokateterden 5'er miligram dozunda 3 defa olmak üzere toplam 15 mg doku plazminojen aktivatörü (tPA) verildi.

Alınan kontrol anjiyogramda oklüzyonda belirgin değişiklik görülmedi ve işlem sonlandırıldı. Hastanın takibinde nörolojik muayenesinde parsiyel iyileşme olduğu görüldü. Hasta işlemten 10 gün sonra nöroloji servisinden fizik tedavi ve rehabilitasyon bölümüne nakledildi ve buradan taburcu edildi. İki ay sonra Takayasu arteriti tanısıyla immünoloji polikliniğine kontrole gelen hastanın nörolojik muayenesinde tama yakın düzelleme olduğu görüldü.

Tartışma ve Sonuç

Takayasu arteriti aort ve ana dallarını etkileyen, arteriyel duvarda kalınlaşma, fibrozis, stenoz, oklüzyon ve anevrizmalara neden olabilen nadir görülen sistemik tutulumlu kronik inflamatuvar bir vaskülitir [1]. Hastalık ilk tanımlandığı yıllarda en yüksek insidans Güneydoğu Asya ülkelerinde ve genç kadın hastalarda bildirilmiş olsa da günümüzde tüm dünyada görülen ve her iki cinsiyeti de etkileyebilen bir hastalık olduğu bilinmektedir. Etiyolojide hücre aracılı otoimmün bir reaksiyonun olabileceği düşünülmekle birlikte kanıtlanmış bir etyolojik faktör henüz bulunamamıştır [2].

Takayasu arteritinin en yaygın ortaya çıkış bulguları ateş, artıralji ve kilo kaybı gibi non-spesifik bulgulardır. Hastalığın sonraki aşamalarında aorta ve dallarında obliterasyon ve inflamasyon ile karakterize kronik faza geçiş olmaktadır. En sık görülen nörolojik semptom baş ağrısıdır. İskemik nörolojik bulgular hastalığın geç evrelerine kadar ortaya çıkmayabilir. Literatürde serebral kan akımını sağlayan dört ana vasküler yapıdan üçünün ok-

lde olmasına raėmen sadece vertigo Őikayeti olan bir Takayasu arteriti olgusu bildirilmektedir [3]. Akut inme ise mortaliteye neden olması bakımından en nemli nrolojik bulgusu olup hastalığın seyri boyunca sıklığı %8-35 olarak bildirilmiştir [4]. Ancak hastalığın ilk olarak akut inme ile ortaya çıkması ok nadirdir. Tanıda erken dönemde BT anjiyografi ve MR anjiyografi vaskler tutulumu gsterebilmesi ve hastaya erken tanı ve tedavi Őansı verebilmesi aısından nemlidir. Anjiyografik inceleme ise tanıda altın standarttır ve iŐlem sırasında tedavi edici olanaklar da sunması aısından ok nemli bir role sahiptir. Literatrde intraarteriyel tPA kullanımı ile ilgili pozitif sonular bildirilmiştir [5]. Semptomların baŐlangıcından itibaren ilk 6 saat ierisinde uygulanan intraarteriyel trombolitik enjeksiyonu mortalite oranları ok yksek olan bu hastalar iin nemli bir tedavi seeneėidir. Bizim olgumuzda olduėu gibi Takayasu arteritinin ilk olarak akut inme ile prezente olması nadir bir durum olduėu gibi, aynı zamanda intraarteriyel trombolitik tedavi iin sol taraftan distale ulaŐım olmadıėı iin sol orta serebral artere saė taraftan ulaŐılması olgumuzu daha da ilgin hale getirmektedir. Intraarteriyel trombolitik tedavi bizim olgumuzda akut dönemde etkili olmamakla birlikte hastaya uzun dönemde fayda saėlamıŐ grnmektedir.

Sonu olarak akut inme ile prezente olan gen hastalarda Takayasu arteriti tanısı da akılda tutulmalıdır.

ıkar akıŐması ve Finansman Beyanı

Bu alıŐmada ıkar akıŐması ve finansman destek alındıėı beyan edilmemiŐtir.

Kaynaklar

1. Numano F, Okawara M, Inomata H, Kobayashi Y. Takayasu's arteritis. Lancet 2000; 356(9234): 1023-5.
2. Johnston SL, Lock RJ, Gompels MM. Takayasu arteritis: a review. J Clin Pathol 2002; 55(7): 481-6.
3. Yazıcılar O, Sagun OF, Yanılmaz M, Etlik O. A case of Takayasu's arteritis presented with vertigo alone. J Clin Anal Med 2014; DOI: 10.4328/JCAM.1919.
4. Kim HJ, Suh DC, Kim JK, Kim SJ, Lee JH, Choi CG et al. Correlation of neurological manifestations of Takayasu's arteritis with cerebral angiographic findings. J Clin Imaging 2005; 29(2): 79-85.
5. Ernst R, Pancioli A, Tomsick T, Kissela B, Woo D, Kanter D, et al. Combined intra-venous and intra-arterial recombinant tissue plasminogen activator in acute ischemic stroke. Stroke 2000; 31(11): 2552-7.

How to cite this article:

Akdaė T, Ergun O, Tatar İG, Durmaz HA, Hekimoėlu B. A Case of Takayasu's Arteritis Presenting with Acute Stroke. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 464-6.



Advanced Hypoplasia of the Flexor Pollicis Longus Tendon in Twins

İkizlerde Fleksör Pollisis Longus Tendonunun İleri Derecede Hipoplazisi

Flexor Pollicis Longus Hipoplazisi / Hypoplasia of Flexor Pollicis Longus

Nazan Sivrioğlu¹, Özüm Tunçyürek²

¹Plastik ve Rekonstruktif Cerrahi AD., ²Radyoloji AD., Adnan Menderes Üniversitesi Tıp Fakültesi, Aydın, Türkiye

Olg u sunumu, 30. TÜRKRAD 4-9 Kasım 2009, Antalya, TÜRKİYE Kongresinde Poster bildirisi olarak sunulmuştur.

Özet

Fleksör pollisis longus (FPL) tendonunun ileri derecede hipoplazisi literatürde nadir karşılaşılan bir anomalidir. Bu çalışmada, 2.5 yaşında ikiz kardeşler sunuldu. İlginç olarak, her iki kardeşte FPL tendonunun belirgin hipoplazisi saptandı ve eşlik eden başka bir anomali yoktu. Fizik muayene ve manyetik rezonans görüntüleme ile birlikte olgular incelendiğinde FPL tendonunda hipoplazi saptandı.

Anahtar Kelimeler

Fleksör Pollisis Longus; Tendon; MRG; Hipoplazi; İkiz

Abstract

Advanced hypoplasia of the flexor pollicis longus (FPL) tendon is a rarely encountered anomaly in the literature. 2.5-year-old twins were reported in this study. Interestingly, marked hypoplasia of the FPL tendon was detected in both twins, and no other accompanying anomaly was present. Hypoplasia of the FPL tendon was detected when the cases were subjected to physical examination and magnetic resonance imaging.

Keywords

Flexor Pollicis Longus; Tendon; MRI; Hypoplasia; Twins

DOI: 10.4328/JCAM.2478

Received: 10.04.2014 Accepted: 28.05.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 467-9

Corresponding Author: Özüm Tunçyürek, Adnan Menderes Üniversitesi Tıp Fakültesi Radyoloji AD Aydın, Türkiye.

GSM: +905301437669 E-Mail: ozum.tuncyurek@gmail.com

Introduction

Congenital anomalies of the thumb create more serious functional problems than the anomalies of the other digits. The congenital absence of the flexor pollicislongus (FPL) tendon is rarely reported in the literature [1,2]. The absence of dorsal interphalangeal crease can be used as a diagnostic tool for some cases. Only nine cases of tendon absence have been reported in the literature (Table).

Table: A list of the cases with congenital absence and hypoplasia of the FPL tendon in the literature

Case No	Sex	Age	Diagnosis	Reference
1	Female	1	PE	Miura 1977
2	Female	6	PE	Arminio 1979
3	Female	13	PE, EMG	Koster 1984
4	Female	7	PE, EMG	Uchida et al. 1985
5	Male	5	PE	DeHaan et al. 1987
6	Female	11	PE	Thomas and Mathivanan 1999
7 (hypoplasia)	Male	10	MR	Alicioglu 2007
8	Female	14	X ray, MR	Demirseren et al. 2007
9	Male	43		Lutes and Tamurian 2007
10	Male	28	X ray, CT	Sures 2009
11 (hypoplasia)	Male	2.5	PE, X ray, MR	Present case
12 (hypoplasia)	Male	2.5	PE, X ray, MR	Present case

Advanced hypoplasia of the FPL tendon is rarely reported in the literature. We report 2.5-year-old twin cases in this study. Interestingly, these cases are twins with marked hypoplasia of the FPL tendon but no other accompanying anomaly.

Case Report

Two-and-a-half-year-old right-handed male twins were presented with the inability to flex their right and left thumbs at the interphalangeal joint. The patients were subjected to a thorough physical examination, X-rays, and the magnetic resonance imaging (MRI) of the hands, and hypoplasia of theFPL tendons was detected.

There was neither family history of congenital anomaly nor any trauma. They had no additional abnormality in the physical examination. Upon the physical examination, both thumbs were observed to be hypoplastic. However, no thenar atrophy existed. The dorsal wrinkles were less evident at the interphalangeal joint of the thumb of both hands (Figures 1, 2, and 3). There was no active flexion at the interphalangeal joints. The passive range for the motion of the thumbs was restricted on both

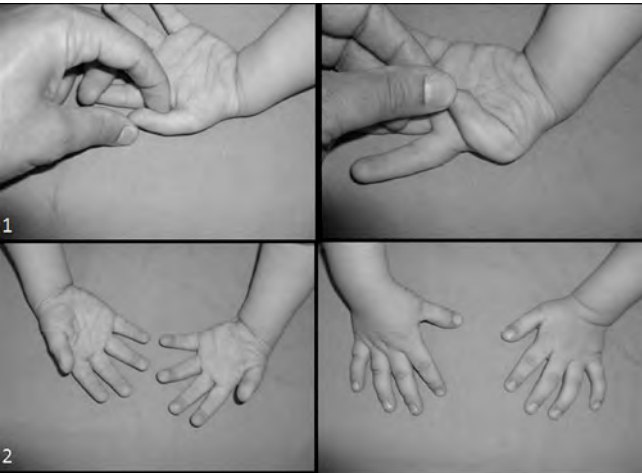


Figure 1. Absence of dorsal wrinkles on the thumb was detected
Figure 2. The findings are followed in both hands of the twins

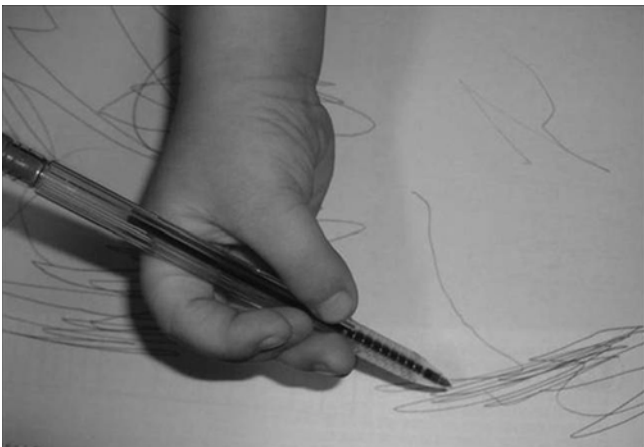


Figure 3. There was no dorsal wrinkle on the thumb

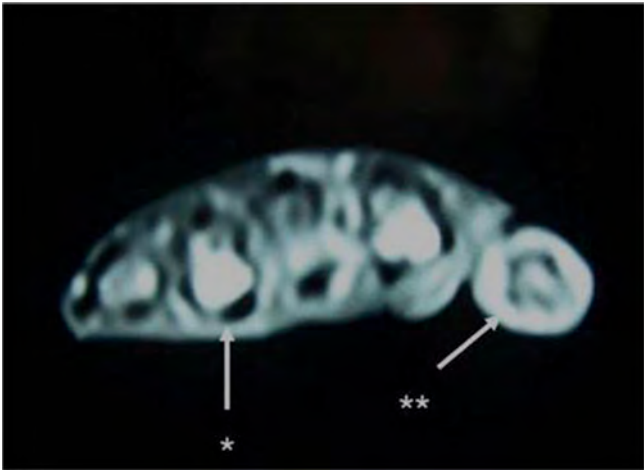


Figure 4. Hypoplasia of the FPL tendon was shown at the transverse T1W section
(**) Normal tendon (*)

hands.Thenar eminences were similar in size. The movements of the metacarpophalangeal and carpometacarpal joints were normal in the physical examination. The X-rays of the hands did not show any hypoplasia of the first phalanges. We did not perform any ultrasonographic examination, for the patients were very young. The MR images of both hands showed that the FPL tendon was in its normal location and extremely thin (Figure 4). This finding and the physical examination finding led to the diagnosis of the hypoplastic tendon.

Discussion

To date, there have been no reported cases of twins with the hypoplasia of FPL tendon in the literature. The diagnosis should be kept in mind for any patient with a hypoplastic thumb who is unable to flex the interphalangeal joint. The congenital inability to flex the interphalangeal joint of the thumb may be due to one of the several causes, including congenital tenovaginitis of the flexor tendon sheath, and partial anterior interosseous nerve paralysis [2-5]. Congenital anomalies of the FPL show various anatomical features. They are classified according to whether there are other associated anomalies, the severity of anomalies, and the affected site of the tendon [3-5]. It can be further divided into four groups as absence, abnormal insertion, abnormal course, and connection.

FPL absence is frequently associated with thenar muscle hypo-

plasia. Thenar muscle hypoplasia is understandable; however, the cause of absence of thenar atrophy is mysterious [2-5]. Aplasia or hypoplasia of the FPL tendon is generally isolated; nevertheless, some cases are accompanied by other congenital anomalies.

Usami reported bilateral FPL tendon absence with craniofacial anomalies [6]. Skeletal hypoplasia of the thumb has been reported in a case report [1,3,4,7]. However, our cases had no skeletal hypoplasia.

Alicioglu [3] reported a 10-year-old boy with the inability to flex the right thumb. In the report concerned, the patient stated that the problem had been present for two months. There was no history of injury or other congenital anomaly. Besides, regarding that case, it was stated that no thenar atrophy existed, and both hands were observed to be symmetrical in the physical examination. Our cases were very young in comparison with that case; both thumbs were observed to be hypoplastic in the physical examination; and there was no thenar atrophy.

FPL tendon abnormalities are commonly isolated; however, some cases are related to congenital anomalies. In 1988, Hagan and Idler demonstrated that a patient with abnormal insertion of the FPL tendon had surgical correction of a congenital ureteric anomaly [8]. Nevertheless, no evidence of the genetic background of this condition was available.

The current report presents a unique finding about the hypoplasia of FPL since it has never been encountered in twins with the involvement of both hands.

Ultrasonography (US) is a considerably cheap and easy technique for diagnosis. However, it is difficult to obtain a good result in very young children by means of the US due to the lack of cooperation. There was a ten-year-old patient who was diagnosed by means of US in the literature [3]. Our cases were 2.5 years of age, and no appropriate US probe was available for US examination. In addition, the disadvantages of US imaging include operator dependence, the difficulty in providing the detailed knowledge of anatomy, and understanding of the potential pitfalls. Therefore, MRI can also be highly accurate and should be considered a diagnostic technique for those patients in the case of whom US cannot be used.

As the surgical treatment depends on important anatomical landmarks, the authors elucidated the feasibility of MRI in the evaluation of flexor tendon morphology of the hand. MRI is not only an accurate diagnostic technique but also beneficial to the treatment procedure. Furthermore, MRI is a highly sensitive technique to demonstrate tendon pathologies.

In conclusion, genetic transfer seems to be a major cause of the hypoplasia of the FPL tendon. Thus, the role of inheritance during the development of advanced hypoplasia of the FPL tendon is yet to be defined. Early diagnosis and supportive treatment will enable to easily overcome all problems that may be caused by the anomaly.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Demirseren ME, Afandiyev K, Durgun M, Kilicarslan K, Yorubulut M. Congenital absence of flexor pollicislongus tendon without associated anomalies of thumb hypoplasia: A case report and review of the literature. *Hand (N Y)* 2007;2(4):184-7.

2. Thomas C, Mathivanan T. Congenital absence of flexor pollicislongus without hypoplasia of the thenar muscles. *J Hand Surg Br* 1999;24(3):385-6.
3. Alicioglu B. Radiologic findings of the flexor pollicis longus hypoplasia. *Skeletal Radiol* 2007;36(1):120-3.
4. DeHaan MR, Wong LB, Petersen DP. Congenital anomaly of the thumb: Aplasia of the flexor pollicis longus. *J Hand Surg Am* 1987;12(1):108-9.
5. Uchida M, Kojima T, Sakurai N. Congenital absence of flexor pollicis longus without hypoplasia of thenar muscles. *Plast Reconstr Surg* 1985;75(3):413-6.
6. Usami F. Bilateral congenital absence of the flexor pollicis longus with craniofacial abnormalities. *J Hand Surg Am* 1987;12(4):603-4.
7. Miura T. Congenital absence of the flexor pollicis longus--a case report. *Hand* 1977;9(3):272-4.
8. Hagan HJ, Idler RS. Limitation of thumb flexion due to an unusual insertion of the flexor pollicis longus. *J Hand Surg Br* 1988;13(4):474-6.

How to cite this article:

Sivrioğlu N, Tunçyürek Ö. Advanced Hypoplasia of the Flexor Pollicis Longus Tendon in Twins. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 467-9.



Subcutaneous Transitional Cell Cancer After Percutaneous Nephrolithotomy: A Case Report

Perkutan Nefrolitotomi Sonrasında Cilt Altı Değişici Hücreli Kanser: Olgu Sunumu

Perkutan Nefrolitotomi ve Değişici Hücreli Kanser/ Percutaneous Nephrolithotomy and Transitional Cell Cancer

Lokman İrkılata¹, Ekrem Akdeniz¹, İrfan Atay², İpek Işık Gönül³, Mustafa Kemal Atilla¹

¹Samsun Eğitim ve Araştırma Hastanesi Üroloji Kliniği, Samsun,

²Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi Üroloji Anabilim Dalı, Ankara,

³Gazi Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji Anabilim Dalı, Ankara, Türkiye

3-7 Ekim 2012 tarihinde yapılan 1. Ulusal Ürolojik Cerrahi Kongresinde Sözlü Bildiri Olarak Sunulmuştur.

Özet

Üst üriner sistem değişici hücreli kanserleri nadir görülen ancak tüm değişici hücreli kanserler gibi ekilim potansiyeli yüksek tümörlerdir. Perkutan nefrolitotripsi (PNL) ise son yıllarda böbrek taşı cerrahisinde ilk sırada kendine yer bulmuş ve üroloji uzmanlarınca rutin uygulamaya girmiştir. Nadir de olsa PNL sırasında böbrek toplayıcı sistem tümörleri ile karşılaşılması olasıdır. Biz makalemizde böbrek toplayıcı sisteminde değişici hücreli kanser olan, ancak mevcut böbrek taşı nedeniyle ile operasyon öncesi tümörü saptanamamış 48 yaşındaki erkek hastamızın PNL sonrası klinik seyrini tartışmayı amaçladık. Taş cerrahisinden üç ay sonra cilt altında kitle ile başvuran hastada, yapılan eksizyonel biyopsi patoloji sonucunun karzinom gelmesi sonrasında uygulanan cerrahi ve kemoradyoterapiye rağmen hastamız ilk müdahaleden 21 ay sonra yaşamını yitirdi. Bizim vakamızda olduğu gibi, PNL öncesinde böbrek toplayıcı sistem tümörü fark edilmeyen hastalar kısa sürede tümör lokal yayılım göstererek ileri evrede tekrar karşımıza gelebilir. Bundan dolayı herhangi bir perkutan girişim esnasında olası tümör varlığı konusunda dikkatli olunmalıdır.

Anahtar Kelimeler

Karzinom, Değişici Hücreli; Nefrostomi, Perkutan; Tesadüfi Bulgular

Abstract

Transitional cell carcinomas of the upper urinary tract are rare but, highly predisposing to tumoral seeding. Percutaneous lithotripsy (PNL) recently has expanded the therapeutic choices for patients with kidney stones and gained popularity by urologic surgeons. Although unusual, renal collecting system tumours may be encountered during PNL. We present and discuss the clinical course of a 48 years old male patient who underwent PNL surgery for kidney stone in whom transitional cell carcinoma in the renal collecting system obscured by stone left undiagnosed. Three months later following PNL he admitted with a bulge on lumbar region. Excisional biopsy revealed carcinoma and therefore, he was directed to chemoradiotherapy and died 21 months later. Renal collecting system tumors undiagnosed during surgery may progress and demonstrate local invasion in a short period of time. Therefore, we recommend to take more caution during any percutaneous access and to exclude the possible existence of tumor.

Keywords

Carcinoma, Transitional Cell; Nephrostomy, Percutaneous; Incidental Findings

DOI: 10.4328/JCAM.2510

Received: 22.04.2014 Accepted: 02.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 500-2

Corresponding Author: Lokman İrkılata, Samsun Eğitim ve Araştırma Hastanesi Üroloji Kliniği, Samsun, Türkiye.

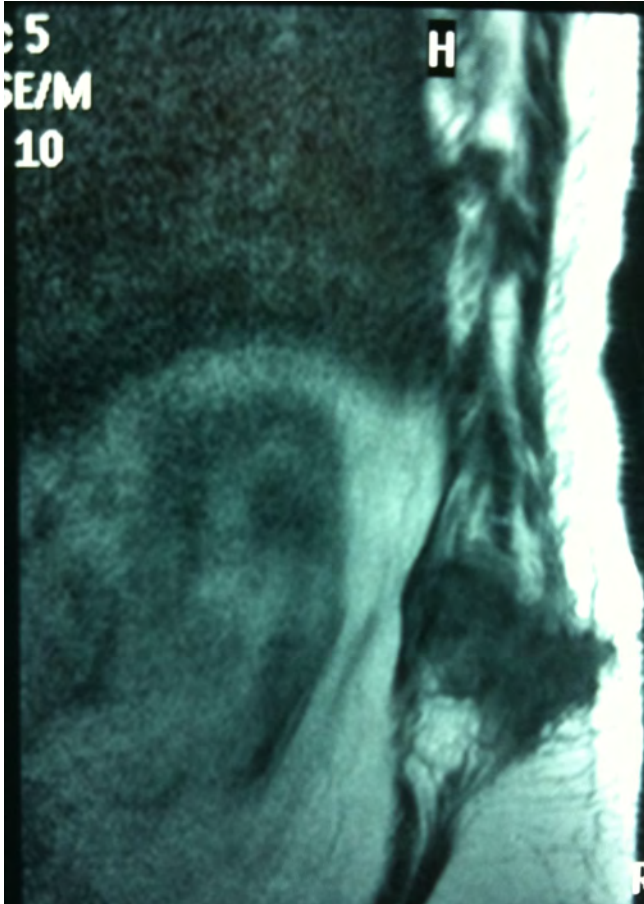
GSM: +905337153627 E-Mail: irkilatamd@gmail.com

Giriş

Üst üriner sistem değişici hücreli kanserleri (DHK), mesane değişici hücreli kanserlerinden farklı olarak nadir görülen kanserlerdir. Renal pelvis tümörleri tüm DHK lerin yaklaşık olarak %5 ini oluşturmaktadır. Daha önemlisi ise bu kanserlerin tanısını koyma güçlüğüdür. Hastalar genelde yan ağrısı, hematüri, üriner enfeksiyon ve ileri evrede ele gelen kitle ile başvururlar. Ancak önemli bir hasta gurubunda tümör insidental olarak saptanabilmektedir. Bu hasta gurubunda tanısı belkide en zor olan beraberinde taş olan böbrek toplayıcı sistem tümörleridir. Biz yazımızda, böbrek taşı tanısı almış olarak başvuran hastamızda Perkutan Nefrolitotomi (PNL) sonrasında PNL giriş traktında cilt altında ele gelen kitle ile tekrar başvuran hastamızı güncel literatür eşliğinde tartıştık.

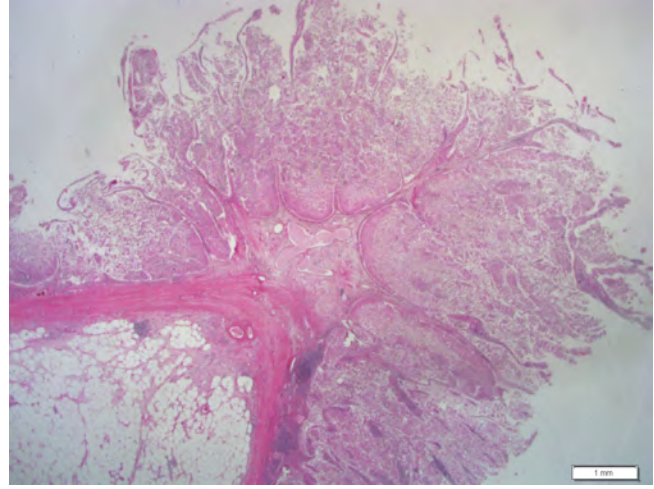
Olgu Sunumu

Kırksekiz yaşında erkek hasta, kliniğimize sağ yan ağrısı ve sağ böbrek taşı tanısı almış olarak başvurdu. Mevcut olan taşla yönelik Bilgisayarlı Tomografide (BT) böbrek toplayıcı sistemini dolduran taş izlendi. Hastanın özgeçmişinde, diabetes mellitus ve sigara öyküsü mevcuttu. Sağ böbrek staghorn taşına alt kaliksten giriş yapılarak PNL uygulandı. Alt ve orta kaliksten pelvise uzanan taş ekstrakte edildi. Hastanın üst kaliksteki taşı görüldü ancak müdahale edilemedi. İkinci seans için planlama yapılmasına karar verilerek işlem sonlandırıldı. Postoperatif 3. ayda hasta PNL giriş traktı bölgesinde cilt altında ele gelen ağrılı sert kitle ile başvurdu. Kitleye yönelik yapılan görüntüleme yöntemlerinin lezyonun boyutu ve lokalizasyonu dışında ek bilgi vermemesi üzerine kitle eksize edildi (Resim 1). Patoloji sonucu,



Resim 1. Cilt altındaki kitleye yönelik yapılan manyetik rezonans görüntülemesinde cilt altında düzensiz sınırlı solid kitle izlendi.

karsinom infiltrasyonu olarak bildirildi. Takiben böbrek toplayıcı sistemine yönelik yapılan görüntüleme yöntemlerinden hiçbir toplayıcı sistemde tümör varlığına yönelik bulgu vermezken, sadece PET CT de kitlenin eksize edildiği bölgede ve böbrekte akümülyasyon olduğu belirtildi. Görüntüleme yöntemleriyle başka uzak metastaz odağı saptanmadı. Tanısal amaçlı yapılan üreterorenoskopide üst kaliksteki rezidü taşın posteromedialinde 1x1 cm boyutunda papiller tümör görüntüsü saptandı. Aynı seansa hastaya nefroüretrektomi, sürrenalektomi ve giriş traktı eksizyonu uygulandı. Patoloji sonucunda, kalikte lokalize düşük dereceli papiller üretelyal karsinom ve PNL traktında tümör infiltrasyonu saptandı. Subepitelyal doku invazyonu dahi olmayan pTa evredeki primer tümöre karşın, PNL traktında tümör saptanması hastayı pT4 evresine yükseltti (Resim 2). Postoperatif



Resim 2. Radikal nefroüretrektomi, sürrenalektomi ve giriş traktı eksizyonu sonrası patolojik incelemede üst kaliksteki papiller yapıdaki transizyonel hücreli kanser görüntüsü, H&E X40.

dönemde hastaya önce 25 seans 50 Gy radyoterapi (RT) uygulandı. RT bitiminde takip edilen hastanın kontrol PET CT de aynı sahada akümülyasyon izlendi. Bu sonuçtan sonra hastaya cisplatin gemstabin den oluşan kemoterapi başlandı. Hastanın takiplerinde ciltte tümör fistülü ve aksiller lenfadenopati gelişti. Tümör fistülü bölgesinde şiddetli kanaması olan hasta hospitalize edildi, ikinci kürden sonraki kemoterapisine devam edilmedi. Hastaya bu dönemden sonra palyatif tedavi uygulandı. Hasta ilk taş cerrahisinden 21 ay sonra hayatını kaybetti.

Tartışma

Üst üriner sistem tümörleri tüm böbrek tümörlerinin %10'unu ve tüm DHK lerin %5'ini oluşturur [1,2]. Üst üriner sistemde yeralan tüm DHK lerin %75'i böbrekte yerleşirken sadece %25'i üreterde lokalizedir [1,3]. Böbrek DHK'lerinin yıllık insidansı 0,6-1,1/100.000 olarak bildirilmektedir [2].

Böbrek DHK'lerin etiolojisinde yaş ve cinsiyet ile beraber sigara en yüksek risk faktörü olarak dikkat çekmekte ve tek başına riski 2,5-7 kat arttırmaktadır [4,5]. Üst üriner sistem taşları benzer şekilde riski arttıran faktörlerdendir. Sigara ve üst üriner sistem taşları dışında kimyasallara maruziyet, boya ve plastik sanayinde çalışmak, siklofosamid, şistozoma, kronik enfeksiyonlar, uygunsuz ve aşırı analjezik tüketimi, aşırı kahve tüketimi, papiller nekroz ve balkan nefropatisi diğer risk faktörleridir [2,4,5]. Bizim hastamızda risk faktörlerinden sigara ve böbrek toplayıcı sisteminde taş varlığı mevcut olan faktörlerdi. Hastamızda 30 pa-

ket/yıl sigara kullanım öyküsü olmasına karşın, böbrek taşı tanısı yeni başlayan yan ağrısı nedeni ile insidental olarak kondu. Böbrek toplayıcı sistem kanserlerinin en sık başvuru şikayeti mikroskobik veya makroskobik hematüri, künt böğür ağrısı, disüri, üriner enfeksiyon ve ele gelen kitledir. Ayrıca hastada yaygın hastalık meydana gelmişse anemi, kilo kaybı, istahsızlık, bulantı-kusma, kemik ağrıları ile başvurulabilir. Görülme sıklığı açısından bu hasta gurubunda %75 oranında görülebilen hematüri ve künt böğür ağrısı, bizim hastamızda olduğu gibi böbrek taşı olan hasta gurubunda da görülebilen nonspesifik semptomlardır. Taş varlığında oluşan inflamasyon bu hasta gurubunda tanı koymayı oldukça zorlaştırmaktadır. Hastamızda klinik belirti ve bulgular tanı koymada bize herhangi bir katkı sağlamadı. Böbrek DHK'leri nadiren perkutan taş cerrahisi esnasında tesadüfen saptanabilmektedir [6]. Bizim hastamız bu tanıma uyan hasta olmasına rağmen hastada tümör nefroskop ile ulaşılmadığı için bırakılmak zorunda kalınan üst kaliks taşı ile aynı lokalizasyonda idi ve tümör işlem boyunca izlenemedi.

Böbrek DHK tanısında ultrasonografi, intravenöz pyelografi, bilgisayarlı tomografi ve manyetik rezonans görüntüleme önemli yere sahiptir. Görüntüleme yöntemlerinin kendi aralarında artı ve eksileri olmakla beraber, bizim hastamızda olduğu gibi taş varlığında görüntüleme yöntemleri tanı koymada başarısız olabilmektedir. Hastamızda ciltaltı kitle oluşumu ve patolojik tanı konması sonrasında dahi yapılan görüntüleme yöntemlerinde primer tümör varlığına dair bulgu saptanamadı. Elimizdeki tek görüntüleme bulgusu, tanı sonrası yapılan Pozitron Emisyon Tomografisinde (PET) böbrek ve eksize edilen kitle bölgesindeki akümülyasyon oldu, ancak bu bulgu nonspesifik bir bulgu olup bize net tanı koydurmada yetersiz kaldı.

Böbrek DHK'lerin prognozunda; lenf nodu pozitifliği, eşlik eden karsinoma insutu varlığı, multifokalite, eşlik eden mesane veya üreter tümör varlığı, hastanın yaşı ve kadın cinsiyet varlığı gibi çeşitli faktörler etkili olmakla beraber tümörün evresi ve derecesi en önemli iki faktördür [7]. Hastamız primer tümörün lokalizasyonu, tek odaklı olması ve patolojisi ile iyi prognostik faktörlere sahip olmasına rağmen böbrek giriş traktında tümör saptanması hastayı pT4 evresine yükseltmiştir. Hall ve arkadaşları hasta serilerinde evre T4 hastalarda median sağkalı süresinin 6 ay olduğunu bildirmişlerdir [3]. Katz ve arkadaşları ise 500 hastalık PNL serilerinde 1 hastada PNL esnasında alınan biyopsi sonucunda, 1 hastada postoperatif dönemde yapılan CT görüntülemesinde ve 1 hastada da nonfonksiyonel hale gelen böbreğin nefrektomi patolojisinde TCC saptamışlardır. TCC saptanan bu 3 hastada 2-19 ay içinde yaşamlarını yitirmişlerdir [6]. Hastamızın patolojik evresinin T4 olması nedeni ile postoperatif dönemde adjuvan radyoterapi uygulandı. pT3-T4 ve lenf nodu tutulumu olan hastalarda adjuvan kemoradyoterapi önerilmektedir [8]. Özellikle radyoterapinin kemoterapi ile kombine verilmesi beklenen yaşam süresi konusunda daha olumlu sonuçlar vermektedir. Bizim hastamızın ısrarla kemoterapiyi kabul etmemesi nedeni ile öncelikle radyoterapi uygulandı. Fakat hastamızda 6 ay sonra lokal nüks gelişti. Lokalizasyonu ve yayılımı ile tekrar eksizyona uygun olmayan nüks sonrası sisplatin ve gemtabin den oluşan kemoterapi uygulaması başlandı. Bu dönemde lokal nüks bölgesinde cilt ülserasyonu ve şiddetli kanama nedeni ile hasta hospitalize edildi. 2. Kür sonrası tedaviye devam edilemedi. Üç hafta sonra hasta ilk girişimden 21 ay sonra ya-

şamını yitirdi.

Perkutan taş cerrahisi son yıllarda üroloji pratiğinde oldukça önemli bir yer edinmiştir. İşlem esnasında nadirde olsa, hastamızda olduğu gibi tümör ile karşılaşılması olasıdır. Bu durumda tümörün rezeke edilerek fulgarize edilmesi ve işlemin sonlandırılması veya aynı seansta altın standart tedavi olan nefroüretrektomi ve parsiyel sistektomi yapılması uygulanabilecek tedavi yöntemleridir. Bizim olgumuzda olduğu gibi tümörün görülmeyerek uzun süreli taş cerrahisi uygulaması ise DHK gibi eklim potansiyeli çok yüksek olan tümör varlığında hasta için büyük bir şanssızlık olduğu söylenebilir.

Böbrek toplayıcı sistemde yeralan DHK vakalarında böbrek taşı ile birlikteliği durumunda, hastaların gerek klinik, gerek labaratuvar, gerekse radyolojik olarak atalanması olasıdır. Bu hasta gurubunda, tümörün görülerek erken müdahale edilmesi prognozda son derece önemlidir. Bundan dolayı PNL sırasında olası bir toplayıcı sistem tümörü varlığı konusunda dikkatli olunmalı ve bu konuda preoperatif dönemde yapılan radyolojik görüntülemenin yetersiz kalabileceği unutulmamalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Siegel R, Naishadham D, Jemal A. Cancer statistics, 2012. CA Cancer J Clin 2012;62(1):10-29.
2. Munoz JJ, Ellison LM. Upper tract urothelial neoplasms: incidence and survival during the last 2 decades. J Urol 2000;164(5):1523-5
3. Hall MC, Womack S, Sagalowsky AI, Carmody T, Erickstad MD, Roehrborn CG. Prognostic Factors, Recurrence, and Survival in Transitional Cell Carcinoma of the Upper Urinary Tract: A 30-Year Experience in 252 Patients. Urology 1998;52(4):594-601.
4. Lughezzani G, Sun M, Perrotte P, Shariat SF, Jeldres C, Budaus L et al. Gender-related differences in patients with stage I to III upper tract urothelial carcinoma: results from the Surveillance, Epidemiology, and End Results database. Urology 2010;75(2):321-7.
5. Colin P, Koenig P, Ouzzane A, Berthon N, Villers A, Biserte J et al. Environmental factors involved in carcinogenesis of urothelial cell carcinomas of the upper urinary tract. BJU Int 2009;104(10):1436-40.
6. Katz R, Gofrit ON, Golijanin D, Landau EH, Shapiro A, Pode D et al. Urothelial Cancer of the Renal Pelvis in Percutaneous Nephrolithotomy Patients. Urol Int 2005;75(1):17-20.
7. Lughezzani G, Burger M, Margulis V, Matin SF, Novara G, Roupert M et al. Prognostic factors in upper urinary tract urothelial carcinomas: a comprehensive review of the current literature. Eur Urol 2012;62(1):100-14.
8. Czito B, Zietman A, Kaufman D, Skowronski U, Shipley W. Adjuvant radiotherapy with and without concurrent chemotherapy for locally advanced transitional cell carcinoma of the renal pelvis and ureter. J Urol 2004;172(4):1271-5.

How to cite this article:

İrkilata L, Akdeniz E, Atay İ, Gönül İl, Atilla MK. Subcutaneous Transitional Cell Cancer After Percutaneous Nephrolithotomy: A Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 500-2.



Semiinvasive Aspergillosis Case Coexisting to Metastatic Renal Cell Cancer

Renal Hücreli Karsinom Metastazına Eşlik Eden Semiinvaziv Aspergillozis Olgusu

Semiinvaziv Aspergilloz ve Renal Hücreli Kanseri / Semiinvasive Aspergillosis and Renal Cell Cancer

Hatice Kılıç¹, Ayşegül Şentürk¹, Ayşegül Karalezli¹, H. Canan Hasanoğlu², Hayriye Tatlı³

¹Ankara Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Göğüs Hastalıkları Kliniği,

²Yıldırım Beyazıt Üniversitesi, Tıp Fakültesi Hastanesi, Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı,

³Ankara Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Kliniği, Ankara, Türkiye

Olgu TUSAD 2013 35. Ulusal Solunum Kongresinde sunulmuştur.

Özet

Kronik nekrotizan pulmoner aspergilloz, akciğer dokusunun Aspergillus türleri ile invazyonuna bağlı gelişen; akciğerdeki kavite veya kitle lezyonları varlığı ile saptanır. Aynı zamanda semiinvaziv Aspergilloz olarak da tanımlanır. Semiinvaziv Aspergilloz genellikle immünsüpre hastalarda görülür ve geç tanı koyulursa fatal seyirlidir. Akciğer grafi ve toraks bilgisayarlı tomografisindeki metastatik nodüller nedeniyle hastaneye kabul edilen, 60 yaşındaki renal hücreli kanserli hastayı sunduk. Bronkoscopisinde sarı renkli bronşial sekresyon mevcuttu. Bronşial lavaj sitolojisinde A. Fumigatus'a ait multipl mantar hifaları saptandı. Hastaya Itrakonazol tedavisi uygulandı. Aspergillus ait bulgu izlenmeyen asemptomatik seyirli olguyu, irdeleme sonucu tesadüfen saptanan semiinvaziv aspergilloz varlığı nedeniyle ile sunduk.

Anahtar Kelimeler

Renal Hücreli Kanseri; Semiinvaziv Aspergilloz; Metastaz; Eroin.

Abstract

Chronic necrotizing pulmonary aspergillosis (CNPA) is defined as an cavity or mass lesion in the lung due to invasion of lung tissue by a fungus of the Aspergillus species. It was described also as semiinvasive aspergillosis. Semiinvasive pulmonary aspergillosis is generally seen in patients with primer immunocompromised and it can be fatal in the event of late diagnose. We present 60 years old patient who had had renal cell cancer admitted to hospital with metastatic nodules in his chest X-ray and Thorax computed tomography. We have seen yellow colour of bronchial secretion in his bronchoscopy. Multipl mantar hyphae by A. Fumigatus was detected in his bronchial lavage cytology. Itrakonazol was administred to this patient. We review to this cases due to a semiinvasive aspergillosis was detected randomly when this case who had not both symptomatic and clinical sign by Aspergillosis is investigated.

Keywords

Renal Cell Cancer; Semiinvasive Aspergillosis; Metastasis; Eroin.

DOI: 10.4328/JCAM.2488

Received: 14.04.2014 Accepted: 09.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 473-5

Corresponding Author: Hatice Kılıç, Ankara Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Göğüs Hastalıkları Kliniği, Bilkent Caddesi No: 3, 06800 Ankara, Türkiye.

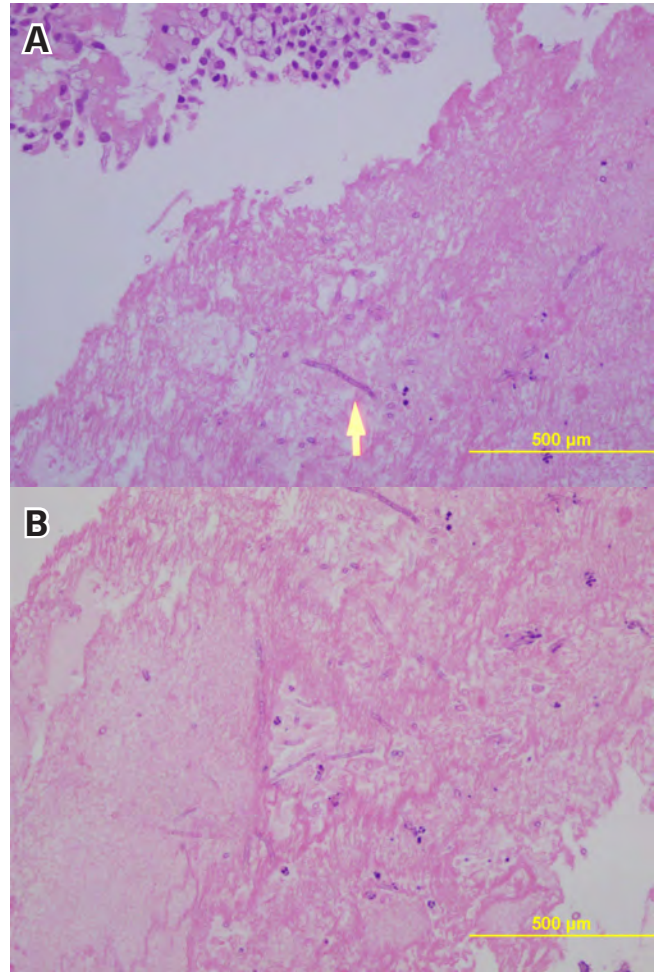
T.: +90 3122912525 F.: +90 3122912705

Giriş

Aspergillus, akciğerde saprofitik kolonizasyondan invaziv nekrotizan pnömoniye kadar değişen özellikte akciğer enfeksiyonu yapabilir [1]. Bu klinik değişkenliği belirleyen hastanın immun durumu ve altta yatan kronik akciğer hastalığıdır [2]. Kronik akciğer hastalıklarının içinde tüberküloz, aktinomiçes, histoplasmosis ve karsinoma sayılabilir [1]. Semiinvaziv aspergillozis sıklıkla yaşlı hastalarda ve KOAH, diabetes mellitus, malnutrisyon ve düşük doz steroid kullanımı gibi komorbid durumlarda ortaya çıkan klinik tablodur [1]. Yavaş seyirli olup radyografik olarak üst lobları ve alt lobların üst bölümlerini tutar [3]. Semiinvaziv aspergillozis tanısı koymak zordur ve genellikle tanı koymada gecikme olur [2]. Tanı; transtorasik veya bronkoskopik olarak mantarın gösterilmesiyle konulur [1]. Olgumuz, metastatik renal hücreli karsinomaya eşlik eden; asemptomatik seyir gösteren semiinvaziv aspergillozis olgusunun akciğerdeki lezyonun kaynağı araştırılırken, araştırma esnasında dokuda gösterilmesi nedeniyle sunulmuştur.

Olgu Sunumu

Berrak hücreli Renal Hücreli kanser (RHK) nedeniyle onkoloji bölümüne takip edilen 60 yaşında erkek hasta; çekilen kontrol Toraks bilgisayarlı tomografide (BT)'de metastatik nodüllerde artış nedeniyle göğüs polikliniğine yönlendirildi. Fizik muayenesinde belirgin patoloji saptanmadı. Tam kan sayımında Beyaz Küre: 6400 K/, Hb: 12.4 g/dl, Platelet: 287000 K/UI idi. Total IgE: 46 IU/ml, sedim: 72 mm ve CRP: 54 mg/L (0-5 mg/L) saptandı. Biyokimyasında özellik yoktu. Hastanın öyküsünde eroin kullanımı mevcuttu. Kanda bakılan aspergillus spesifik Ig-E negatif geldi. Özgeçmişinde 2009 yılında RHK tanısı almış, sağ nefrektomi yapılmış. RT ya da KT tedavisi verilmemişti. Hastanın 2009 yılında çekilen Toraks BT' sinde her iki akciğerde çok sayıda düzensiz sınırlı en büyüğü 27 mm çapa varan metastatik nodüller saptanmıştı. Hastaya bronkoskopi yapılmış, lavaj sitolojisi iltihabi hücreler olarak raporlanmıştı. Hasta kontrole çağırılmış ancak hasta kontrole gelmemiş. 2011 yılında çekilen Toraks BT' de her iki akciğerde en büyüğü sol akciğer alt lob posterior segmentte 45x37 mm boyutlarında ölçülen çok sayıda önceki tetkik ile karşılaştırıldığında sayı ve boyut olarak anlamlı artış gösteren solid kitlesel lezyonlar izlendi. 2011 yılında hastaya bronkoskopi tekrarı yapıldı ve sol alt lob posterior segmentte üzeri sekresyonla kaplı sarı renkli endobronşial lezyon izlendi ve buradan biyopsi alındı. Biyopsi patoloji sonucu: aspergillozis için tanısal olan dar açılı dallanan mantar hifaları ile uyumlu idi (Şekil 1a, Şekil 1b). Hastaya tüm vücut taraması için PET-CT çekildi. PET-CT sonucu: Toraksta sağ akciğer üst lob anterior segmentte yaklaşık 13 mm çaplı (SUV maks:7), alt lob posterobazal segmentte 15 mm çaplı (SUV maks:2.3), 16 mm çaplı (SUV maks:4.9), sol akciğer üst lob anterior segmentte yaklaşık 11 mm çaplı (SUV maks:3.7), alt lob anterobazal segmentte yaklaşık 1 cm çaplı (SUV maks:2.5) nodüler lezyonlarda ve sol alt lob posterobazal segmentte 28x45 mm (SUV maks:13.7) ve hemen medialinde sınırları net ayrılamayan 30x25 mm (SUV maks:7.7) boyutlarında kitle lezyonlarında patolojik artmış 18F FDG tutulumu izlenmişti. Sağ paratrakeal, aortikopulmoner pencerede izlenen, sağ paraaortik lenf nodlarında patolojik 18F FDG tutulumu izlenmemişti. Hastaya tanı amaçlı akciğerdeki solid nodüllere yönelik transtorasik biyopsi yapıldı. Biyopsi patolojisi: des-



Şekil 1. Epitel altında Aspergillus'a ait mantar hifaları (A), Dar acili Aspergillozis mantar hifaları görünümü X400 Hematoksilen eozin (B).

moplastik iltihabi zemin üzerinde büyük oranda solid odaklar, yer yer psödoglandüler yapılar şeklinde infiltrate tümör izlendi. Tümörü oluşturan hücreler geniş, eozinofilik, granüler, yer yer şeffaf sitoplazmalı, yuvarlak nükleuslu, küçük nükleollü saptandı. İmmün histokimyasal incelemede epitelyal membran antijen (EMA), vimentin ile pozitiflik mevcuttu. Napsin fokal zayıf pozitif, TTF-1, keratin 7, CD10, P63, RCC, CD 117, LCA, HCC negatifti. Patolojik olarak renal kitleye ait preparatlarla karşılaştırıldığında akciğerdeki tümör ile renal tümörün morfolojik olarak benzerlik gösterdiği alanlar mevcuttu. Öncelikle metastatik karsinom olarak değerlendirildi. Hastaya akciğerdeki aspergillozise yönelik itrakonazol tedavisi başlandı. Hasta metastatik RKK nedeniyle takibi açısından onkoloji bölümüne yönlendirildi. Onkoloji bölümüne kemoterapi programına alınan hasta kemoterapi sonrası ilaçsız takip edilmektedir.

Tartışma

Kronik nekrotizan aspergillozis diğer adıyla semiinvaziv aspergillozis veya subakut invaziv aspergillozis ilk olarak 1981 yılında Geffer ve Binder tarafından tanımlanmıştır [4]. Genellikle *A. Fumigatus* etkindir [4]. Semiinvaziv Aspergillozis invaziv pulmoner aspergillozisin tersine yavaş seyirlidir [4]. İlerlemesi haftalar hatta aylar alabilir [4]. Damar invazyonu veya diğer organlara yayılım beklendik bir olay değildir [4]. Semiinvaziv aspergillozis nadir görülür, bu konuyla ilgili bilgilerimiz vaka sunumlarına ve küçük vaka serilerine dayanır [4]. Kronik nekrotizan aspergillozis genellikle orta ve ileri yaştaki hastalarda görülür [4]. Ge-

nellikle KOAH, geçirilmiş tüberküloz sekeli, torasik cerrahi, radyoterapi, pnömokonyoz, kistik fibrozis, akciğer enfarktı veya nadir olarak sarkoidoz gibi altta yatan kronik bir akciğer hastalığı vardır [4]. Genellikle DM, alkolizm, kronik karaciğer hastalığı, düşük doz kortikosteroid tedavisi, malnutrisyon ve konnektif doku hastalıkları gibi hafif immunsuprese kişilerde görülmektedir [4]. Hastalar genellikle ateş, 1-6 ayda kilo kaybı, yorgunluk, keyifsizlik gibi konstitusyonel semptomlarla gelmektedir. Bu semptomlara kronik produktif öksürük ve hemoptizi de eşlik edebilmektedir [4]. Bazen hastalar asemptomatik de olabilmektedir (4). Akciğer grafisi ve toraks BT' de genellikle üst loblarda konsolidasyon, plevral kalınlaşma ve kaviter lezyon görülmektedir [4]. Karakteristik olarak radyolojik bulgular haftalar veya aylar içinde ilerlemeye eğilimlidir [4].

Hastaların çoğunda A. Fumigatusa karşı serum IgG pozitif saptanmaktadır [4-5]. Aspergillus karşı hızlı deri reaksiyonu testi de yardımcı bir testtir ancak tanısal değildir [4]. Balgam veya bronkoskopi lavajının aspergillus kültürü de pozitif olabilmektedir [4]. Aspergillusun hücre duvarında bulunan bir eksoantijen olan Galaktomannanın; serumda daha nadiren bronkoalveolar lavaj ve diğer vücut sıvılarında gösterilmesi, invaziv aspergilloz tanısına katkıda bulunmaktadır. Ancak tanıda kullanılan yöntemler olan lateks aglütinasyon ve ELISA testi ile Galaktomannana dair yanlış pozitif sonuçlar saptanması; bu testi sadece erken tanının kritik önem taşıdığı hastalarda kullanılabilir kılmaktadır. Galaktomannan testi, bu nedenle tanıda rutin olarak her hastada kullanılmamaktadır [5]. Çalışmalarda sensitivitesi %29-100, spesifitesi ise %90'ın üzerinde saptanmıştır [6]. Biz de aynı gerekçe ve hastanemizde rutin çalışılan bir test olmasından dolayı bu testi çalışmadık. Tanıda yer diğer testler de Aspergillus spesifik İmmünglobulin-E ve Aspergillus PCR'dır. Aspergillus spesifik İmmünglobulin-E tanıda öncelikle ABPA'yı destekleyen bir bulgu olmakla birlikte rutin çalışılan bir test olduğu için olgumuzda çalışıldı ve negatif sonuç saptandı. Aspergillus PCR ise tanıya katkısı olmakla birlikte düşük spesifite ve sensitiviteye sahip olması nedeni ile tanıda az sıklıkta kullanılmaktadır [7]. Olgumuzda bu test çalışılmadı. Tanıyı kesinleştirmek için histolojik olarak mantarın doku invazyonunun ve kültürde aspergillus üremesinin gösterilmesi gerekmektedir [4]. Patolojik olarak semiinvaziv aspergilloz akciğer dokusunun nekrozu, kavite duvarının akut veya kronik inflamasyonu ve hifaların gösterilmesi ile karakterizedir [4]. Tanıyı koymak zordur bu nedenle genellikle tanıda gecikme olmaktadır [4]. Bu da morbidite ve mortalite gelişmesine neden olmaktadır [4]. Semiinvaziv aspergilloz, literatürde mide, kolorektal ve akciğer kanseri malignitelerine eşlik eden klinik olgu sunumu şeklinde bildirilmektedir [8]. Literatürde renal hücreli karsinom ve semiinvaziv aspergilloz birlikteliği olan olgu bildirilmemiştir. Eşlik eden KOAH, diabetes mellitus gibi hastalıkları olmayan hastanın eroin kullanımı ve altta malignitesi dışında ek hastalığı yoktur. Hastanın bronkopisindeki endobronşiyal lezyondan alınan biyopside Aspergillus için spesifik olan dar açılı mantar hifaları görünümü saptandı. Dokuda etkenin gösterilmesi subakut, kronik seyir ve invaziv olmayan klinik tablo nedeni ile semiinvaziv Aspergilloz olarak değerlendirildi ve olguya itrakonazol tedavisi başlandı.

Sonuç olarak, renal hücreli karsinom akciğer metastazı şeklinde presente olan, subakut seyirli olgumuz; metastazla uyumlu klinik tablo göstermekteydi. Aspergillus düşündürecek bir klinik izlen-

meyen olgu; akciğerde saptanan lezyonlara yönelik yapılan araştırma esnasında, asemptomatik seyir esnasında irdeleme sonucu semiinvaziv Aspergilloz saptanması nedeni ile sunulmuştur.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

- 1- Jhun BW, Jeon K, Eom JS, Lee JH, Suh GY, Kwon OJ et al. Clinical characteristics and treatment outcomes of chronic pulmonary Aspergillosis. Med Mycol 2013;51(8):811-17.
- 2-Nam HS, Jeon K, Um SW, Suh GY, PyoChung M, Kim H et al. Clinical characteristics and treatment outcomes of chronic necrotizing pulmonary Aspergillosis: a review of 43 cases. Int J Infect Dis 2010;14:479-82.
- 3-Joung MK, Kong DS, Song JH, Peck KR. Concurrent Nocardia related brain abscess and semi-invasive pulmonary Aspergillosis in an immunocompetent patient. J Korean Neurosurg 2011;49:305-307.
- 4-Zmeili OS and Soubani AO. Pulmonary Aspergillosis: a clinical update. Q J Med 2007;100(6):317-34.
- 5- Sapmaz F, Sapmaz İ, Saba T, Haberal C. Türkiye Aspergillus enfeksiyonu-na bağlı kronik plevral empiyemde güncel tedavi yaklaşımları. J Clin Anal Med 2012;3(3):374-8.
- 6- Mennink-Kersten MA, Klont RR, Warris A, Op den Camp HJ, Verweij PE. Bifidobacterium lipoteichoic acid and false ELISA reactivity in aspergillus antigen detection. Lancet 2004; 363:325-27.
7. Hope WW, Walsh TJ, Denning DW. Laboratory diagnosis of invasive aspergillosis. <http://infection.thelancet.com> 2005;5(10):609-22.
- 8- Baliko Z, Sarosi V, Illes MB, Varga Z, Hegedus G, Molnar P et al. PET-CT imaging and reality. Pathol Onco Res 2011;17(2):393-5.

How to cite this article:

Kılıç H, Şentürk A, Karalezli A, Hasanoglu HC, Tatlı H. Semiinvasive Aspergillosis Case Coexisting to Metastatic Renal Cell Cancer. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 473-5.



Leuconostoc Spp. Bacteremia in a Patient with Sigmoid Colon Cancer

Sigmoid Kolon Kanserli Bir Hastada Tespit Edilen Leuconostoc Spp. Bakteriyemisi

Leuconostoc spp. Bakteriyemisi / Leuconostoc spp. Bacteremia

Havva Avcıküçük¹, Serap Süzük¹, Cem Gençay², Harun Mıkcı³

¹Tıbbi Mikrobiyoloji Laboratuvarı, ²Genel Cerrahi Kliniği, ³Anestezi ve Reanimasyon Kliniği, Kırıkkale Yüksek İhtisas Hastanesi, Kırıkkale, Türkiye

Özet

Leuconostoc türleri fırsatçı patojenler olup nadiren enfeksiyon etkeni olarak karşımıza çıkarlar. Özellikle immünsüprese hastalarda, invaziv işlem uygulanan ve önceden antibiyotik tedavisi almış hastalarda enfeksiyonlara sebep olabildikleri bildirilmektedir. Bu olguda kan kültüründen izole edilen intrinsek vankomisin dirençli Leuconostoc spp sunulmaktadır. Olgu 56 yaşında erkek hasta olup, tip II diyabeti ve kronik obstrüktif akciğer hastalığı (KOAH) vardır. Bir buçuk yıl önce sigmoid kolon kanseri sebebiyle opere edilmiştir. Sonrasında radyoterapi ve kemoterapi almış olan hasta kolostomi ağzında darlık gelişmesi sebebiyle tekrar hastanemize başvurmuştur. Hastanın ateşi yükseldiği için ampirik tedavi başlanmıştır. Hastadan alınan bir set kan kültüründe (Bactec 9050, Becton-Dickinson, ABD) gram pozitif koklar görülmüştür. Bakteri API 20 Strep (BioMerieux, Fransa) kiti ile Leuconostoc spp olarak tanımlanmıştır. CLSI (Clinical and Laboratory Standards Institute) önerilerine göre disk difüzyon yöntemi ile antibiyotik duyarlılık testi çalışılmıştır. İzolat, disk difüzyon metodunda linezolid ve kinopristin-dalfopristine duyarlı, penisilin, ampicilin, eritromisin, tetrasiklin, vankomisin ve teikoplanine dirençli olarak bulunmuştur. Vankomisin direnci E-test (AB Biodisk, Solna, İsveç) yapılarak doğrulanmıştır.

Anahtar Kelimeler

Leuconostoc; Bakteriyemi; Vankomisin

Abstract

Leuconostoc species are opportunistic pathogens that rarely encountered as an infection agent. It has been reported that, this pathogen could cause infections especially in immunosuppressive patients, after invasive procedures and antibiotic treatment. In this report, we aim to present a case with intrinsically vancomycin resistant Leuconostoc spp. that was isolated in blood culture. Fifty six years old male patient with type II diabetes mellitus and chronic obstructive pulmonary disease had been operated for sigmoid colon cancer one a half years ago. He was taken radiotherapy and chemotherapy right after the operation. The patient was admitted to our hospital with a complaint of stenosis in colostomy opening. Empirical treatment was started for high fever. Gram positive coccus was reported in the blood culture(Bactec 9050, Becton-Dickinson, USA). The isolate was identified as Leuconostoc spp. with API 20 Strep (BioMerieux, French) kit. Antibiotic susceptibility test was performed by the disk diffusion method according to CLSI (Clinical and Laboratory Standards Institute) recommendations. The isolate was found susceptible to linezolid and quinupristin-dalfopristine, while it was resistant to penicilin, ampicillin, erythromycin, tetracycline, vancomycin and teicoplanin by the disk diffusion method. Vancomycin resistance was confirmed by E-test (AB Biodisk, Solna, Sweden).

Keywords

Leuconostoc; Bacteremia; Vancomycin

DOI: 10.4328/JCAM.2546

Received: 09.05.2014 Accepted: 06.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 476-8

Corresponding Author: Havva Avcıküçük, Kırıkkale Yüksek İhtisas Hastanesi Tıbbi Mikrobiyoloji Laboratuvarı, Kırıkkale, Türkiye.

GSM: +905333550190 E-Mail: havva.sakar@gmail.com

Giriş

Leuconostoc spp. gram pozitif, hareketsiz, katalaz ve pirrolidonil aril amidaz (PYR) aktivitesi negatif fakültatif anaerob koktur. Bu cinse ait bakteriler kanlı agarda alfa ya da non hemolitik koloniler oluşturarak ürerler ve sıklıkla viridans streptokoklarla ve laktobasiller ile karıştırılırlar. Ancak bu bakterilerden farklı olarak Leuconostoc türleri vankomisine karşı intrensek direnç gösterirler. Bu organizmalar fırsatçı patojen olup son yıllarda immünsüprese, invaziv girişim uygulanan ve antibiyotik tedavisi almış hastalardan enfeksiyon etkeni olarak izole edilmiştir. Leuconostoc türleri kan kültürleri, hepatik ve intraabdominal abseler, gastrostomi ve trakeostomi bölgeleri, serebrospinal sıvı, periton diyaliz sıvısı ve yara örneklerinden bildirilmiştir [1,2]. Bu olguda hastanemiz laboratuvarında bakteriyemi etkeni olarak kan kültüründen ilk kez izole edilen Leuconostoc spp. sunulmuştur.

Olgu Sunumu

Tip II diyabeti, kronik obstrüktif akciğer hastalığı (KOAH) olan 56 yaşındaki erkek hasta bir buçuk yıl önce karın ağrısı, bulantı, kusma, karında şişlik, gaz ve gaita çıkaramama şikayeti ile acil servise başvurmuş olup yapılan fizik muayene ve laboratuvar tetkikleri sonucunda ileus tanısı koyularak opere edilmiş ve operasyon sırasında sigmoid kolon kanseri olduğu anlaşılmış, ameliyat sonrası hastaya altı kür radyoterapi ve kemoterapi planlanmıştır. Hastanın son kemoterapi küründen sonra kolostomi bölgesinde daralma gelişmesi sebebiyle tekrar hastanemize başvurmuş ve genel cerrahi kliniğine yatırılmış ve kolostomi kapatılarak kolon anastomozu yapılmıştır. Operasyon sırasında ince bağırsak segmentinde yaklaşık 1 cm'lik yaralanma olmuş ve bu kısım iki kat üzerinden kapatılmıştır. Ameliyat sonrası 4. günden itibaren hastanın sol parakolik dreninden safralı vasıfta içerik gelmeye başlamış ancak hastanın karın ağrısının, bulantı-kusmasının, ateşinin olmaması, gaz ve gaita çıkışının olması nedeniyle kontrollü fistül olarak değerlendirilmiş ve hasta tekrar opere edilmemiş olup CRP değeri; 26.70mg/dL, beyaz küresi;13K/uL, sedimentasyon; 71mm/h olarak bulunmuştur. Hastanın ateşinin çıkması üzerine bir set kan kültürü ile beraber biyokimya ve hemogram tetkikleri için kan alınmıştır. Hastanın beyaz küresi; 20.40K/uL, CRP; 43.09mg/dL olarak tespit edilmiştir. Laboratuvarımıza gönderilen kan kültürü setinde (Bactec 9050, Becton-Dickinson, ABD) ikinci günde, iki şişede de üreme saptanmış ve yapılan gram boyamada gram pozitif koklar tespit edilmiştir. Klinik, telefonla aranarak bilgilendirme yapılmış ve hastaya enfeksiyon hastalıkları uzmanı tarafından linezolid başlanmıştır. Pozitif sinyal veren kan kültür şişelerinden koyun kanlı agar (KlasMed, Türkiye), eozin metilen blue agar (KlasMed, Türkiye) ve çukulata agara (KlasMed, Türkiye) pasaj yapılmıştır. Koyun kanlı agarda alfa hemoliz oluşturan koloniler saptanmıştır. İzolatın tanımlanması için API 20 Strep (BioMérieux, Fransa) kiti kullanılmıştır. Aynı zamanda CLSI önerileri doğrultusunda disk difüzyon yöntemi ile antibiyotik duyarlılık testi yapılmıştır [3]. Testlerin değerlendirilmesi sonucu bakteri Leuconostoc spp. olarak belirlenmiş ve antibiyotik duyarlılık testinde linezolid ve kinopristin-dalfopristine duyarlı, penisilin, ampisilin, eritromisin, tetrasiklin, vankomisin ve teikoplanine dirençli olduğu görülmüştür. Tanımlama testi ve disk difüzyon testi tekrarlanarak bakterinin Leuconostoc spp. olduğu ve vank-

omisine dirençli olduğu teyit edilmiştir. Vankomisin direnci E-test (AB Biodisk, Solna, İsveç) yapılarak doğrulanmıştır.

Tartışma

Nadir olarak rastlanan Leuconostoc türleri özellikle immün sistemi baskılanmış hastalarda enfeksiyonlara sebep olmaktadır. Ancak bu türlerin insanlarda hangi yolla kolonize olduğu ve enfeksiyona yol açtığı bilinmemektedir [4]. Ancak mukokütanöz bütünlüğü bozan entübasyon, trakeostomi, katater gibi invaziv girişimlerin kaynak olabileceği düşünülmektedir. Yapılan bir çalışmada etkenin izole edildiği tüm hastaların altta yatan önemli bir hastalığının olduğu ve önceden antibiyotik tedavisi aldığı, ayrıca cilt bütünlüğünü bozan bir işlemin yapıldığı görülmektedir [5,6]. Green ve arkadaşları [7] 48 çocuğun gaita örneklerini incelemişler ve değerlendirmede 14 tane vankomisin dirençli gram pozitif kok izole etmişler ve bunların iki tanesinin Leuconostoc türü olduğunu bildirmişlerdir.

Leuconostoc türlerinin neden olduğu menenjit olguları da bulunmaktadır. Ataman Hatipoğlu ve arkadaşları 57 yaşında bir kadın hastanın BOS kültüründen etkeni izole etmişlerdir [4]. Çeşitli malignensilere karşı uygulanan kemoterapi sonrasında gelişen immünsüpresyon sonucunda etkenin izole edildiği görülmektedir. Ülkemizde sunulan bir olguda, akut myeloid lösemili bir hastanın kan kültüründen etkenin izole edildiği görülmüştür [8]. Leuconostoc türleri başlangıçta koloni morfolojisi ve gram boyama görüntüsü ile viridans streptokok olarak düşünülebilir. Bu yanlış, Dhodapkar ve arkadaşlarının olgusunda yaşanmıştır. Araştırmacılar, kısa bağırsak sendromu olan ve intra venöz kateteri bulunan bir çocuk hastanın kan kültüründen izole edilen bakteriyi önce viridans streptokok olarak tanımlanmışlardır. Ancak antibiyotik duyarlılık test sonucunda, bakterinin vankomisine dirençli olduğu görülünce tanımlama testi tekrar edilmiş ve etkenin Leuconostoc spp. olduğu belirlenmiştir [9]. Olgumuz literatürdeki vakalara benzer şekilde; kronik olarak tip II diyabeti ile KOAH'ı olan ve kolon kanseri tanısı almış, opere edilmiş, radyoterapi ve kemoterapi uygulanmış bir hasta olup hastanın kan kültüründen etken olarak Leuconostoc spp izole edilmiştir. Sonuç olarak Leuconostoc türlerinin nadir de olsa bakteriyemi etkeni olabileceği bilindiğinden doğru tanı ve tedavi için üreyen bakterilerin antibiyotik duyarlılığının ve tanımlamalarının doğrulanması hem epidemiyolojik olarak hem de tedaviye yön verilmesi açısından önemlidir. İzole edilen gram pozitif koklarda vankomisin direnci tespit edildiğinde bakterinin Leuconostoc spp. olabileceği de akılda tutulmalı ve mutlaka tür düzeyinde tanımlama yapılmalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Koneman WE, Allen SD, Janda MW, Schreckenberger PC, Winn WC Jr. Color Atlas and Textbook of Diagnostic Microbiology. 5th ed. Philadelphia: Lippincott Williams-Wilkins; 1997. p.577-650.
2. Ruoff IK. Aerococcus, Abiotrophia ve Diğer Aerobik Katalaz-Negatif, Gram Pozitif Koklar. Başustaoglu A, editör. Klinik Mikrobiyoloji. 9. Baskı. Ankara: Atlas Kitapçılık; 2009. p.443-54.
3. Clinical and Laboratory Standards Institute. Performance standards for antimicrobial susceptibility testing; twenty-first informational supplement. CLSI document M100-S21. 2011. p.104-6.
4. Ataman Hatipoğlu Ç, Yıldız E, Köktekir E, İpekkan K, Alp Karakoç A, Demiröz AP.

- Vankomisin dirençli bir Leuconostoc menenjitisi olgusu. Mikrobiyol Bul 2008;42:695-9.
5. Aygün H, Yılmaz Bozkurt H, Memikoğlu O, Çokça F. Olgü sunumu: Leuconostoc bakteriyemili iki olgu. Mikrobiyol Bul 2005;39:225-8.
6. Handwerker S, Horowitz H, Coburn K, Kolokathis A, Wormser GP. Infection due to Leuconostoc species: six cases and review. Rev Infect Dis 1990;2(4):602-10.
7. Green M, Wadowsky RM, Barbadora K. Recovery of vancomycin-resistant gram positive cocci from children. J Clin Microbiol 1990;28(3):484-8.
8. Uncu E, Zer Y, Pehlivan M, Karslıgil T, Haydaroglu Şahin H, Okan V. Nadir rastlanan bir bakteriyemi etkeni: Leuconostoc spp. Gaziantep Tıp Derg 2013;19(1):52-3.
9. Dhodapkar KM, Henry NK. Leuconostoc bacteremia in infant with short-gut syndrome: Case report and literature review. Mayo Clin Proc 1996;71:1171-4.

How to cite this article:

Avcıküçük H, Süzük S, Gençay C, Mıkcı H. Leuconostoc Spp. Bacteremia in a Patient with Sigmoid Colon Cancer. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 476-8.



Datura Stramonium Abuse: A Case Report

Datura Stramonium Kötüye Kullanımı: Olgu Sunumu

Datura / Datura

Muhittin Serkan Yılmaz¹, Cemil Kavalcı², Gülsüm Kavalcı³, Murat Ongar¹, Miray Özlem¹

¹Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Acil Servis, ²Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi Acil Tıp AD,

³Yenimahalle Devlet Hastanesi, Anestezi ve Reanimasyon, Ankara, Turkey

Özet

Datura stramonium; ülkemizde en sık “şeytan elması”, “tatula” gibi isimlerle bilinen belladonna alkaloid ailesinin bir üyesi olan, atropin, hiyosiyamin ve skopolamin içeren halüsinojenik ve antikolinergik etkileri olan bir tür bitkidir. 19 yaşında erkek hasta acil servisimize bilinç değişikliği, anlamsız konuşma şikayetleri ile getirildi. Öyküsünden hastanın semptomların başlamasından 4 saat önce “şeytan elması” denilen bir bitkiden almış olduğu öğrenildi. Bu çalışmada acil servisimize deliryumla getirilen daha sonradan datura stramonium aldığı öğrenilen olguyu sunmayı amaçladık.

Anahtar Kelimeler

Datura Stramonium; Deliryum; Fizostigmin; Acil Servis

Abstract

Datura stramonium, known as devils apple or tatula by the people of Turkey, is a plant known member of a belladonna alkaloid family contains atropine, hyoscyamine and scopolamine having hallucinogenic and anticholinergic effects. 19 years old male patient admitted to emergency department (ED) by his relatives with the complaints of altered mental status, and meaningless speech. History revealed that patient consumed “Datura stramonium” for entertainment about 4 hours before the development of symptoms. In our study we described a case presented by delirium to our emergency department later diagnosed as Datura stramonium poisoning.

Keywords

Datura Stramonium; Delirium; Physostigmine; Emergency Department

DOI: 10.4328/JCAM.2579

Received: 21.05.2014 Accepted: 10.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 479-81

Corresponding Author: Cemil Kavalcı, Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi Acil Tıp AD, Ankara, Turkey.

GSM: +905055762819 E-Mail: cemkavalci@yahoo.com

Giriş

Datura stramonium (DS) ülkemizde yaygın olarak bulunabilen bir bitkidir. Boru çiçeği, abuzambak, bostan karanfili, büyü otu, cin otu, kokar otu, domuz pıtırlı, sihirbaz otu, şeytan elması, şeytan otu, tatula, yeleşik gibi isimlerle de bilinmektedir [1,2]. DS 20-100 cm boyunda, dik gövdeli, 7-14 dallı, siyah tohumlar içeren 3-4 cm'lik yeşil meyveleri ve büyük beyaz boru şeklinde çiçekleri olan bir bitkidir (Şekil 1). Bitkinin bütün parçalarında beladonna alkaloidi olan atropin, hiyosiyamin ve skopolamin bulunmaktadır. Bitkinin özellikle tohumları yüksek konsantrasyonda atropin içermektedir. DS astım, bronşit, hemoroid, egzema gibi rahatsızlıkların herbal tedavisinde kullanılmaktadır. Ayrıca ilaç endüstrisinde de önemli bir yeri mevcuttur [1-6]. DS toksitesinde ajitasyon, deliryum, halüsinasyon, görme bozuklukları, idrar retansiyonu, koma ve ölüm görülebilmektedir [1-3].

Olgu Sunumu

19 yaşında erkek hasta Acil servisimize bilinç değişikliği, anlamsız konuşmalar, etrafa bağırıp çağırma şikayetleriyle getirildi. Hastanın bilinci açık, yer, zaman, kişi oryantasyonu bozuktu. Kooperasyon sağlanamıyordu, ajitasyonları ve dezoryantasyonu vardı. Kendi kendine anlamsız konuşmaları ve bakışları vardı. Özgeçmişinde kronik hastalığı yoktu. Tansiyon arteriyel; 135/72 mmHg, Nabız; 105/dk, Ateş; 37,2oC Solunum sayısı; 18/dk idi. Pupilleri izokorik, bilateral midriyazisi mevcuttu. Deri ve ağız kuruydu. Barsak sesleri hipoaktif. Elektrokardiyografisinde sinüs taşikardisi mevcuttu. Laboratuvarında tam kan, biyokimya, kan gazı değerleri normaldi. Yapılan toksikolojik taramada ilaç veya madde tespit edilemedi. Bu bulgular ışığında, hastada antikolinergik toksikodrom olabileceği düşünüldü ve destek tedavisine başlandı. Öykü derinleştirildiğinde; hastanın 4 saat önce “şeytan elması” denilen bir bitkiden halüsinojen etkisi nedeniyle almış olduğu öğrenildi. Ulusal Zehir Danışma Merkezi (UZEM) aranarak bilgi alındı. Madde alımından sonra 4 saat geçmiş olduğu için gastrik lavaj ve aktif kömür uygulanmadı. Ajitasyonları sebebiyle midazolam 5 mg intravenöz yoldan titre edilerek uygulandı. Kısa bir süre ajitasyonları gerileyen hastanın takiplerinde tekrar ajitasyonları olması sebebiyle, titre edilerek ek 5 mg midazolam daha verildi. Solunum depresyonu açısından hasta monitorize gözlem odasında yakın takip altında tutuldu. Ajitasyonlarının sonlanmaması üzerine 2 mg fizostigmin 5 cc serum fizyolojik ile sulandırılarak 5 dakikada infüzyon şeklinde uygulandı. Fizostigmin uygulaması sonrası 2 dakika içinde hastanın ajitasyonları tamamen geriledi. Dezoryantasyonu ve nonkoopere durumu tamamen ortadan kayboldu. Takiplerinde herhangi bir sıkıntısı olmaması üzerine hasta 8 saat sonra taburcu edildi.

Tartışma

DS, yaygın olarak Jimson tohumu olarak bilinmektedir [7]. Bu bitkinin antikolinergik etkileri; içerdiği atropin, skopolamin ve hiyosiyamine bağlıdır. Her bir tohum tanesi yaklaşık 0,1 mg atropin içermektedir. Yüz tohum toplamda 6-10 mg arası atropin içermektedir ve insan için 10 mg'ın üzerinde atropin alımı ölümcül sonuçlar doğurabilir [4-7]. Bizim olgumuzda olduğu gibi halüsinojenik ve öforik etkisi nedeniyle de gençler arasında kötüye kullanımı nadir olsa da görülebilmektedir. Semptomlar genellikle oral alımlarda 30-60 dk sonra başlar. Başlangıç semptomları halüsinasyonlar, mukozalarda kuruluk, susuzluk hissi, pupiller-



Resim 1. *Datura stramonium*

de dilatasyon, görme bozukluğu, konuşma bozukluğuyla devam eden halüsinasyonlardır [8-10]. Beraberinde taşikardi, idrar retansiyonu ve ileusu içeren semptomlarda görülür. Nadiren hipertermi, solunum arresti, konvülsiyonlar gözlenebilir. Gastrointestinal motilitenin azalması toksinin eliminasyonunu geciktirerek 24-48 saate kadar semptomların devam etmesine neden olabilir. Literatürde DS'nin ağız yoluyla alımı sonucu deliryum, halüsinasyonla, ajitasyon, konfüzyon ve ölüm gelişen vakalar bildirilmiştir [1;4;11;12]. Bizim hastamızda bilinç değişikliği ve ajitasyonla gelmişti.

Antikolinergik zehirlenmenin tedavisi konservatiftir ve özgül antidotu fizostigmindir. Kurzbaum DS tedavisinde Fizostigmin kullanımı önermiştir [13]. Fizostigmin kan-beyin bariyerini etkin bir şekilde geçebilir ve geri dönüşümlü olarak antikolinesteraz inhibisyonu yapar. Hemodinamik bozulmaya neden olan taşidistritmi, ciddi ajitasyon, koma, konvülsiyon, ciddi diskinezi, ve solunum depresyonu varsa fizostigmin kullanımı önerilmektedir. Özellikle benzodiyazepinlerin cevapsız kaldığı ve kontrolü gereken deliryumda ve ciddi ajitasyonda düşünülmelidir. Erişkin dozu 2 mg intravenöz olup, 5 dakikadan daha uzun bir sürede uygulanması önerilmektedir [13-16].

Sonuç

Acil servislere deliryumlara gelen hastalarda ayrıntılı anamnez alınmalı, ayırıcı tanıda bitkisel ürünlerin kötüye kullanımı da düşünülmelidir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

- Bildik F, Kahveci O, Aygencel G, Keleş A, Demircan A, Aksel G, Temizkan E. Türkiye'den Şifalı Otlar ile İki Zehirlenme Olgusu; Hemoroid Ağrısını Hafifletmek için *Datura*, Afrodisyak Etki için *Mandragora*. AKATOS 2011;2(2):18-21. doi: 10.5505/jaemcr.2011.07279
- Boumba VA, Mitselou A, Vougiouklakis T. Fatal poisoning from ingestion of *Datura stramonium* seeds. Vet Hum Toxicol 2004;46:81-2.
- Wax PM, Young AC. Anticholinergics. In: Tintinalli JE, Stapczynski JS, Ma OJ, Cline DM, Cydulka RK, Meckler GD, eds. Tintinalli's Emergency Medicine: A Comprehensive Study Guide. 7th ed. New York, NY:McGraw-Hill;2011, p.1305-8.
- Özkan S, Salt Ö, İpekçi A, Düzgün İ, İkizceli İ. *Datura innoxia* Çayına Bağlı Zehirlenme. JAEMCR 2010;1(2):11-3. doi: 10.5505/jaemcr.2011.14633
- Uzun E, Saniyar G, Adersen A, Karakoc B, Otük G, Oktayoglu E et al. Traditional medicine in Sakarya province (Turkey) and antimicrobial activities of selected species. J Ethnopharmacol 2004;95(2):287-96.
- Esental E, Kevseroğlu K, Aytaç S, Özyazıcı G. Değişik azot dozlarının Samsun çevresinde doğal floradan toplanan *Datura* (*Datura stramonium* L.) bitkilerinin önemli bitkisel özelliklerine etkisi. Turk J Agric For 2000; 24(3):333-9.
- Wiebe TH, Sigurdson ES, Katz LY. Angel's trumpet (*Datura stramonium*) poison-

- ning and delirium in adolescents in Winni-peg, Manitoba: summer 2006. *Paediatr Child Health* 2008;13(3):193-6.
- 8.Klein-Schwartz W, Oderda GM. Jimson weed intoxication in adolescents and young adults. *Am J Dis Child* 1984;138(8):737-739.
9. Parissis D, Mellidis C, Boutis A, Apostolidis K, Ignatiadis M, Kiosses V, Milonas I. Neurological findings in a case of coma secondary 140 to Datura stramonium poisoning. *Eur J Neurol* 2003;10(6):745-6
10. Diker D, Markovitz D, Rothman M, Sendovski U. Coma as a presenting sign of Datura Stromonium seed tea poisoning. *Eur J Intern Med* 2007;18(4):336-8.
- 11.Urich RW, Bowerman DL, Levisky JA, Pflug JL. Datura stramonium: a fatal poisoning. *J Forensic Sci* 1982;27(4):948-54.
12. Bouziri A, Hamdi A, Borgi A, Hadj SB, Fitouri Z, Menif K, Ben Jaballah N. Datura stramonium L. poisoning in a geophagous child: a case report. *Int J Emerg Med* 2011;4(1):31. doi: 10.1186/1865-1380-4-31.
13. Kurzbaum A, Simsolo C, Kvasha L, Blum A. Toxic delirium due to Datura stramonium. *Isr Med Assoc J* 2001;3(7):538-9.
14. Vanderhoff BT, Mosser KH. Jimson weed toxicity: management of anticholinergic plant ingestion. *Am Fam Physician* 1992;46(2):526-30.
- 15.Burns MJ, Linden CH, Graudins A, Brown RM, Fletcher KE. A comparison of physostigmine and benzodiazepines for the treatment of anticholinergic poisoning. *Ann Emerg Med* 2000; 35(4):374-81.
- 16.Russell J, Edwards C, Jordan C. Jimsonweed poisoning associated with a homemade stew-Maryland, 2008. *Morbidity and Mortality Weekly Report* February 2010;59(4):102-4.

How to cite this article:

Yılmaz MS, Kavalcı C, Kavalcı G, Ongar M, Özlem M. Datura Stramonium Abuse: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 479-81.



Undescended Testis Located in Incarcerated Inguinal Hernia: Case Report

İnkarsere İnguinal Herni Kesesi İçinde İnmemiş Testis: Olgu Sunumu

İnkarsere İnguinal Herni / Incarcerated Inguinal Hernia

Eyüp Murat Yılmaz¹, Harun Arslan², Edip Gönüllü³

¹Genel Cerrahi, ²Radyoloji, ³Anesteziyoloji, Van Bölge Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Van, Türkiye

Özet

İnguinal hernilerin bir komplikasyonu olan inkarserasyonun görülme oranı %1-2 olarak bilinmektedir. Genellikle omentum ve barsak gibi hacmi daha büyük ve serbest organlar herni kesesi içinde sıkışmaktadır. İnmemiş testis ise prematüre doğumlarda %9-25, matür doğumlarda %3,5-6 oranında görülen ve malignite riski bulunan bir ürolojik problemdir. Literatürde malignite dejenarasyonu normalden 5-30 kat daha fazla olarak bildirilmektedir. Biz bu çalışmada inkarsere inguinal herni kesesi içinde sıkışmış olan inmemiş testisli nadir bir olguyu sunuyoruz.

Anahtar Kelimeler

İnmemiş Testis; Herni; Ultrasonografi

Abstract

As a complication of incarceration, inguinal hernias encountered in the emergency department and the average incidence rate is known 1-2%. Bodies trapped in the hernia sac are usually greater and free organs such as omentum and bowel. Undescended testes is an urological problem which have a malignancy risk of 9-25 % in prematur born, 3,5-6 % in matur born. In literature; undescended testes has an 5-30 times increased risk of malign degeneration. In this case we offer an incarcerated inguinal hernia sac in cases of undescended testes rarely encountered in the emergency department.

Keywords

Undescended Testes; Hernias; Ultrasonography

DOI: 10.4328/JCAM.2570

Received: 20.05.2014 Accepted: 12.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 482-4

Corresponding Author: Edip Gönüllü, Van Bölge Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Anesteziyoloji, Van, Türkiye.

GSM: +905057672488 E-Mail: edipgonullu@gmail.com

Giriş

İnguinal herniler, özellikle erkek ve ileri yaş popülasyonunda, karın duvarının zayıflaması veya intraabdominal basıncın artması sonucu görülen bir durumdur [1]. İnguinal hernilerin en önemli komplikasyonları inkarserasyon ve strangulasyon olup, görülme oranı % 1-2 olarak bilinmektedir [2]. Herni kesesi içinde çekum, çıkan kolon, apendiks, sigmoid kolon, uterus, fallop tüpleri, mesane sıkışabilmektedir [3].

Skrotumda olmayan testis anlamına gelen inmemiş testis, genitouriner sistemin en sık görülen konjenital anomalisidir [4]. Matür erkek bebeklerde görülme sıklığı % 3 -5 olup, prematürlerde bu oran % 30' lara kadar çıkmaktadır. İnmemiş testisin en önemli komplikasyonu, normal yerleşimli testisli kişilere göre testis kanseri riskinin 40 kata kadar artmasıdır [4]. İnmemiş testis ürolojik bir problem olarak yaygın olarak görülsede inguinal herni kesesinde boğulma oranı oldukça düşüktür. Ayrıca intraabdominal yerleşimli testis atrofiye uğrayıp spermatogenez işlevini yerine getiremeyeceği için infertilite için de risk faktörüdür. [5]. Biz burada inkarsere herni kesesi içinde inmemiş testis saptanan olguyu literatür eşliğinde sunduk.

Olgu Sunumu

28 yaşında erkek hasta, sağ kasıkta şişlik ve 24 saattir devam eden karın ağrısı şikayeti ile acil servise başvurdu. Hastanın bulantı ve kusması yoktu. Gaz ve gaita deşarjı mevcuttu. Hastanın özgeçmişinde sağ tarafta inmemiş testis tanısının olduğu öğrenildi. İki yıldır sağ inguinal hernisinin olduğu ve zaman zaman kendisinin redükte ettiği öğrenildi. Olgunun acil servise kabulünde yapılan muayenesinde, genel durumu iyi, şuuru açık, vital bulguları normal idi. Batın muayenesinde defans ve rebound yoktu. Sağ inguinal bölgede inkarsere inguinal hernisi mevcut olup, cilt hafif hiperemik görünümde ve hassas idi. Diğer sistem muayeneleri ise normal olarak saptandı. Yapılan skrotal ultrasonografi (USG)'sinde sağ inkarsere inguinal herni ve herni kesesi içinde testis ile uyumlu görünüm mevcuttu (Şekil1). Olgunun labarotuvan parametreleri incelendiğinde beyaz küre 15000 mm³ (4000-11000), diğer değerler ise normal aralıktaydı. İnkarsere inguinal herni tablosundaki hasta genel cerrahi ile konsülte edilerek acil ameliyata alındı. Hastaya sağ inguinal anterior kesi yapıp katlar geçilerek, kord askıya alındı ve herni kesesi bulunup açıldı. Herni kesesinin içinde atrofik testis olduğu görüldü ve intraoperatif üroloji konsültasyonu istendi. İnmemiş testis öyküsü bilinen hastada atrofik testisin malignite olasılığı nedeniyle sağ orşiektomi yapıldı. Takiben herniorafi yapılarak ameliyat sonlandırıldı (Şekil 2). Hastanın patoloji sonucu düzenli yapıda, atrofik görünümde, spermatogenez yapamayan sağ testis materyali olarak raporlandı.

Tartışma

Testis normalde fetal gelişimin 8-15. haftaları arasında abdominal kaviteden aşağı doğru yer değiştirerek inguinal kanala, 25-35. haftalar arasında da skrotuma yerleşir. Testisin fetal hayattaki göçünde sorun olması inmemiş testis, inguinal herni, hidrosel gibi durumlara neden olmaktadır [3]. İnmemiş testisin infertilite, malignite, torsiyon ve beraberindeki herni nedeniyle ilk 1 yaş içinde medikal veya cerrahi olarak skrotuma indirilmesi gerektiği belirtilmektedir [4]. Ceylan ve ark. [4] inmemiş testisli olgu serilerinde ortalama tedavi yaşını 13 ± 9 olarak bildir-



Şekil 1. İnguinal bölgede testis ile uyumlu görünüm



Şekil 2. Olgunun intraoperatif görüntüleri

diler. Bu olgu sunumunda inkarsere inguinal herni kesesi içinde inmemiş testis saptanan erişkin olgu literatür eşliğinde sunuldu. İnguinal bölgede şişlik saptanan olgularda, inmemiş testis, inguinal herni, hidrosel, lenfadenopati, spermatik kord kisti, nuck kanalı kisti ya da testis torsiyonunu düşünülmektedir [6]. İnmemiş testis tanısında radyolojik görüntülemeler maliyet açısından efektif olmayıp çoğunlukla kesin sonuç vermez. Genel anestezi altında yapılacak fizik muayane, radyolojik yöntemlerden daha ucuz ve etkilidir [7]. Bu çalışmada inguinal bölgede şişlik, ağrı ve kızarıklık saptanan olguda inkarsere inguinal herni düşünülmüş olup herni kesesi içinde sıkışan organın testis olduğu radyolojik ve intraoperatif olarak saptanmıştır. Bu çalışmada olgunun kesin tanısı ve ameliyat öncesi akut karının diğer nedenlerinin dışlanması için USG yapılmıştır.

İnguinal hernilerde komplikasyon gelişmemesi için ameliyatın elektif olarak planlanması önerilmektedir. İnkarserasyon, ingu-

inal hernilerin %1 oranında görülen bir komplikasyonudur. İnguinal herniler inkarsere olduğunda oluşabilecek mortalite ve morbiditenin inkarserasyonun süresi ve hastanın yaşı ile doğru orantılı olduğu ifade edilmektedir [8]. İnkarsere veya strangüle şekilde gelen komplike vakalarda sıkışan organ ince barsak ya da kolon ise uygun şekilde rezeksiyon ve vakanın durumuna göre anastomoz ya da stoma tercih edilebilir. Eğer sıkışan organ omentum ise sadece omentektomi ile hasta daha az morbidite altında ameliyat sonlandırılabilir [9]. Sulu ve ark. [10] amyand fıtıklarında komplikasyonsuz serilerde apendektominin güvenli olduğunu ve aynı seansta herni tamirinin yapılabileceğini rapor etmişlerdir. Litaratürde inmemiş testisin inkarsere herni ile birlikteliğinin nadir olduğu genellikle çocuk yaşta fark edilip aynı seansta hem herni tamiri hem de inmemiş testisin yerine tespitinin yapıldığı belirtilmektedir [5]. Yine postpubertal inmemiş testis ile karşılaşılırsa malignite riski nedeniyle orşiektomi uygulanmalıdır [4]. Bu olgu sunumunda herni kesesi içinde bulunan testise malignite riski nedeniyle orşiektomi uygulandı ve sonrasında herniorafi yapılarak ameliyat sonlandırıldı.

Sonuç

İnkarsere inguinal herni seyrek olmayan bir durum olup, kesesi içinde sıkışan organın inmemiş testis olması nadirdir. Malignite, infertilite riskinin yanında torsiyon, herniasyon, inkarserasyon riski nedeniyle inmemiş testisin tanısının doğru ve erken konulması ve uygun cerrahi zamanının planlanması önemlidir. Bundan dolayı yeni doğan ve çocukluk döneminde rutin doktor kontrollerinin önemi hakkında toplumun bilgilendirilmesinin önemli olduğu düşünülmektedir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Gianetta E, De Cian F, Cuneo S, Friedman D, Vitale B, Marinari G, et al. Hernia repair in elderly patients. *Br J Surg* 1997;84 (7): 983-5.
2. Fitzgibbons RJ, Giobbie-Hurder A, Gibbs JO, Dunlop DD, Reda DJ, McCarthy M Jr et al. Watchful waiting vs repair of inguinal hernia in minimally symptomatic man: a randomized clinical trial. *JAMA* 2006; 295(3): 285-92.
3. Arslan Y, Karaman K, Altintoprak F, Kahyaoglu Z, Zengin I, Uzunoglu MY, et al. Indirect inguinal hernia sac containing testis and spermatic cord in an adult patient with cryptorchidism. *J Surg Case Rep* 2014; 2014(3).
4. Ceylan K, Yılmaz Y, Yıldız A, Kuş A, Gönülalan H. Kriptorşidizm: 164 Olgunun; birliktel bulunan anomali, komplikasyon, tedavi modalitesi, hasta yaşı açısından irdelenmesi. *Tıp Araştırmaları Dergisi* 2006; 4(3): 24-6.
5. Pirinççi N, Geçit İ, Güneş M, Taken K, Kaya TY, Ceylan K. İnmemiş testis: Erken tanı ve tedavinin önemi. *Yeni Üroloji Dergisi* 2011; 6(3): 33-6.
6. Yurtçu M. Çocuklarda İnmemiş Testis ve Yeni Tedavi Yaklaşımları. *Selçuk Üniv Tıp Derg* 2011; 27(2):121-3.
7. Anafarta K, Arıkan N, Bedük Y. Temel Üroloji. Ankara: Güneş; 2011. p. 423-31.
8. Erikoğlu M, Şimşek G, Bal A. Lokal anestezi ile inkarsere skrotal dev inguinal herni onarımı. *Selçuk Tıp Derg* 2012; 28(4): 251-3.
9. Yıldız R, Öztaş M, Sezer HK, Can MF, Zeybek N, Peker Y. Nadir görülen akut batin nedenleri: Primer omental torsiyon ve idiyopatik segmental omental nekroz. *Anatol J Clin Invest* 2013;7(4):234-7.
10. Sulu B, İşler S. Çocuklarda Amyand Herninin ve bu özelliklerin ameliyat öncesi tanıda kullanılması. *Ulusal Travma Acil Cerrahi Derg* 2010;16(3):253-9.

How to cite this article:

Yılmaz EM, Arslan H, Gönüllü E. Undescended Testis Located in Incarcerated Inguinal Hernia: Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 482-4.



Primary Tuberculosis Osteomyelitis of Rib

Kaburganın Primer Tüberküloz Osteomiyeliti

Kaburga Tüberkülozu / Rib Tuberculosis

Murat Oncel¹, Guven Sadi Sunam¹, Huseyin Yildiran¹, Ilknur Kucukosmanoglu²

¹Selcuk University Medical Faculty, Department of Thoracic Surgery,

²Konya Education and Research Hospital, Department of Pathology, Konya Türkiye

Özet

Tüberküloz, dünyada gelişmekte olan ülkelerde mortalite ve morbitidenin büyük bir nedenidir. Kostaanın primer tüberkülotik osteomiyeliti nadirdir. Anamnez ve fizik muayeneyi takiben radyolojik ve histolojik olarak incelemeler yapıldı. Kaburgada osteomiyelitin teyit edilmesinin ardından, etkilenmiş kaburga parçasının subperiostal olarak rezeksiyonu yapıldı. Kosta rezeksiyonunu, kosta tüberkülozu tedavisinde etkili yöntem olan bir yıl oral antitüberküloz tedavisi takip etti.

Anahtar Kelimeler

Teşhis; Kaburga Tüberkülozu; Cerrahi

Abstract

Tuberculosis has been a major cause of morbidity and mortality, significantly in the developing parts of the world. Primary tuberculous osteomyelitis of the rib is rare. Following history and examination, radiological and histological investigations were performed. After confirming osteomyelitis of rib, excision of the sinus tract along with subperiosteal resection of the affected part of the rib was done. Resection of affected part of the followed by oral antituberculosis drug for one year is an effective modality of treatment for rib tuberculosis.

Keywords

Diagnosis; Rib Tuberculosis; Surgery

DOI: 10.4328/JCAM.2509

Received: 21.04.2014 Accepted: 14.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 527-9

Corresponding Author: Murat Oncel, Selcuk University Medical Faculty, Department of Thoracic Surgery, Konya, Türkiye.

GSM: +905054850180 E-Mail: moncel01@hotmail.com

Introduction

Tuberculosis is rarely located on ribs [1]. Chest pain, subcutaneous mass are among clinical symptoms due to fractured ribs. Radiological findings help us to locate the lesion and to plan the procedure, but they are nonspecific and nondiagnostic. Definitive diagnosis can be made by surgical excision. We present a case of rib tuberculosis which was presented only with chest pain.

Case Report

A 23-year-old woman presented with a 3-month history of pleuritis right-sided chest pain. On chest examination showed tenderness and pain on palpation over the posterior part of the right seventh rib. Findings on auscultation of the lungs were normal. The results of a complete blood count and other laboratory tests performed on admission were normal. The patient was immunized against tuberculosis. A chest radiograph revealed a 3-cm destructive lesion in the posterior aspect of the right seventh rib. A CT scan of the chest revealed destruction of the right seventh rib and the presence of an adjacent 3-cm soft-tissue mass [Figure 1]. The operative findings confirmed erosion of the rib. A bone scan showed increased uptake at this rib. Surgery was performed with extrapleural drainage and excision biopsy from the bone and adjacent soft tissue. Resected specimens were subjected to pathological examination and primary tuberculous osteomyelitis was confirmed [Figure 2]. Culture results of the specimens confirmed a *Mycobacterium tuberculosis* infection. A specimen for culture (aerobic, anaerobic and fungal) was obtained from the around of fractured mass. Bacteriological culture was negative. No acid-fast bacilli were seen on the material. There was no primary tuberculosis focus and any history of contact with tuberculosis patients. Oral anti-tuberculosis drugs were given to patient for a period of one year (rifampicin in doses of 10–15 mg/kg, isoniazid (INH) 5mg/kg, ethambutol 15 mg/kg, and pyrazinamide 25 mg/kg of body weight for initial two months followed by a ten-month therapy of two drugs rifampicin and INH in the same doses). The patient



Figure 1. CT scan of the chest of a patient with rib tuberculosis shows destructive lesion at the right seventh rib and a 2-cm soft tissue mass overlying the lesion.

follow up three months was comfortable and there was no pain on the area.

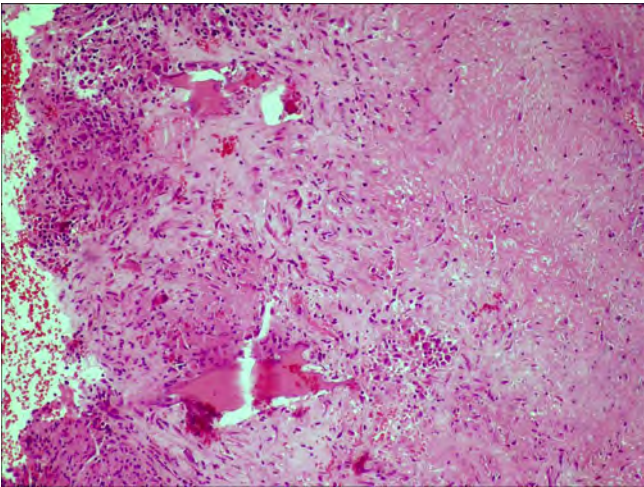


Figure 2. The bone spicules destructed with chronic granulomatous inflammation and caseification necrosis (H&E staining ×400).

Discussion

Chest wall and rib tuberculosis is very rare [1]. The presentation of this case was a progressive enlargement of surrounding tissue and destruction of the rib. The most common pathogenesis of rib involvement in tuberculosis is considered as hematogenous spread from the lungs [2]. The findings in our case illustrate that the diagnosis of tuberculosis should be considered in a patient with a destructive rib lesion from an area of endemicity. The diagnosis is often delayed until the osseous destructions are seen on the chest radiogram and computed tomography of palpable chest wall masses develop [3]. Radiological findings are nonspecific. Osteolytic and osteoblastic features are seen. A plain chest radiograph is taken as part of the routine examination if you suspect the tuberculosis. The looking of apical lung lesion that is suggested tuberculosis can provide diagnostic clues in the differential diagnosis of suspected lesion. We presented a case of rib tuberculosis in a patient with only pleuritic chest pain and developed osseous destructions. CT is useful in demonstrating bony sclerosis and fractured. Tuberculosis may mimic many disease processes and affect any anatomical structures. In developing countries where tuberculosis is common the diagnosis can be made easily by evaluating clinical course, history and laboratory examinations. Biopsy with fine needle aspiration is made for diagnostic purpose and acid-fast bacilli was seen on smear and tubercle bacilli can be seen in culture. However rate of diagnosis of fine needle aspiration and biopsy is generally low. Most patients were relatively young, free of underlying disease, and lived in a country in which tuberculosis is endemic. The disease presented indolently with rib pain and swelling. Extrasternal disease is detectable in less. Diagnosis was based on histologic examination of infected tissues and mycobacterial cultures. Most patients recovered after surgical removed and combination drug therapy.

Conclusion

We also recommend surgical excision of the affected rib, as it ensures the removal of the diseased area, enables histopatho-

logical confirmation, tissues which aids in better distribution of the anti-tubercular drugs.

Competing Interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

- 1.Enarson DA, Ashley MJ, Grzybowski S, Ostapkowicz E, Dorken E. Non-respiratory tuberculosis in Canada. Epidemiologic and bacteriologic features. Am J Epidemiol 1980;112(3):341-51.
- 2.Mathlouthi A, Ben M'Rad S, Merai S, Friaa T, Mestiri I, Ben Miled K, et al. Tuberculosis of the thoracic wall. Presentation of 4 personal cases and review of the literature. Rev Pneumol Clin 1998;54:182-6.
- 3.Lee SH, Abramson SB. Infections of the musculoskeletal system by M. tuberculosis. In: Rom WN, Garay SM, editors. Tuberculosis. New York: Little, Brown and Company; 1996. p. 635-44.
- 4.Cildag O, Aktas O, Mirici A. In vitro susceptibilities of mycobacterium tuberculosis agents some quinolones and amikacin. Tr J Med Sci 1994;21:117-21.

How to cite this article:

Oncel M, Sunam GS, Yildiran H, Kucukosmanoglu İ. Primary Tuberculosis Osteomyelitis of Rib. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 527-9.



Dexmedetomidine Use for Awake Nasotracheal Fiberoptic Intubation: A Case Report

Uyanık Fiberoptik Nasotrakeal Entübasyonda Deksmetomidin Kullanımı: Olgu Sunumu

Uyanık Fiberoptik Nasotrakeal Entübasyonda Deksmetomidin Kullanımı / Dexmedetomidine Use for Awake Nasotracheal Fiberoptic Intubation

Dilek Günay Canpolat¹, Mustafa Denizhan Yıldırım², Fatma Doğruel³

¹Ağız, Diş ve Çene Cerrahisi AD, ²Pedodonti AD, ³Ağız, Diş ve Çene Cerrahisi AD, Erciyes Üniversitesi, Diş Hekimliği Fakültesi, Kayseri, Türkiye

Bu olgu "December 05-07, 2013; 2nd European Airway Congress, Istanbul-Turkey'de poster bildirisi olarak sunulmuştur.

Özet

Uyanık fiberoptik nasotrakeal entübasyon temporomandibular eklem ankilozu gibi beklenen zor havayolu durumlarında uygulanır. Hasta uyumunu sağlamak için yeterli düzeyde sedasyon sağlanmalıdır. Bu olguda, genel anestezi altında bilateral temporomandibular eklem ankilozu nedeniyle deformite onarımı planlanan ve kısıtlı ağız açıklığı olan hastada, beklenen zor havayolu durumunda, uyanık fiberoptik nasotrakeal entübasyonda deksmetomidin kullanımına dair deneyimimiz literatür eşliğinde tartışılmıştır.

Anahtar Kelimeler

Zor Havayolu; Uyanık Fiberoptik Entübasyon; Deksmetomidin

Abstract

Awake fiberoptic nasotracheal intubation is usually performed in patients with an anticipated difficult airway. For patient comfort, it's important to provide adequate level of sedation. In this case, we discussed our experience with the literature about usage of dexmedetomidine in nasotracheal awake fiberoptic intubation for the expected difficult airway in a patient with bilateral temporomandibular joint ankylosis and limited mouth opening who was planned to deformity repair under general anesthesia.

Keywords

Difficult Airway; Awake Fiberoptic Intubation; Dexmedetomidine

DOI: 10.4328/JCAM.2553

Received: 12.05.2014 Accepted: 14.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 488-90

Corresponding Author: Dilek Günay Canpolat, Erciyes Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi, Ağız, Diş ve Çene Cerrahisi Hastanesi C Blok 1. Kat Talas, Kayseri, Türkiye. T.: +90 3522076666/29183 F.: +90 3524380657 E-Mail: dgcanpolat@gmail.com

Giriş

Uyanık fiberoptik nasotrakeal entübasyon, temporomandibular eklem ankilozu gibi beklenen zor havayolu durumlarında uygulanan bir yöntemdir [1]. TME ankilozunun tedavisi cerrahidir ve genel anestezi gerektirir. Ağız açıklığının kısıtlı olması orotrakeal entübasyonu olanaksız hale getirir. Bu hastalarda en iyi yöntem uyanık fiberoptik bronkoskopi (FOB) ile nasotrakeal entübasyondur [2]. İşlem sırasında hasta uyumunu ve konforunu sağlamak için yeterli düzeyde sedasyon sağlanmalıdır. Opioidler, ketamin, propofol ve deksmedetomidin gibi pek çok ajan uyanık fiberoptik nasotrakeal entübasyonda sedasyon amaçlı kullanılmıştır [1;3-4].

Olgu Sunumu

Otuz beş yaşında, 55 kg ağırlığında, ASA I erkek hasta Erciyes Üniversitesi Ağız, Diş ve Çene Cerrahisi kliniğine diş ağrısı şikayeti ile başvurdu. Hastanın yapılan muayenesinde her iki temporomandibular ekleminden ileri derecede hareket kısıtlılığı olduğu ve ağız açıklığının olmadığı tespit edildi. Hasta anamnezinden; hastanın 1 yaşındayken geçirdiği travma sonrası oluşan ağız açıklığında kısıtlılık geliştiği ve bu nedenle 13 yaşındayken sağ-sol submandibular insizyon ile her iki temporomandibular ekleminden opere edildiği öğrenildi. Operasyon sonrası ağız açıklığı artan hastanın, 1 yıl sonra şikayetlerinin tekrarladığı ve 19 yaşında sağ temporomandibular ekleminden yeniden opere edildiği ve her iki ameliyatında da orotrakeal entübasyonun olanaksız olması nedeniyle trakeostomi açıldığı bilgisine ulaşıldı. Ancak şikayetlerinde belirgin bir düzelme olmayan, çiğneme hareketi olmadığı için sadece sıvı gıdalarla beslenmek zorunda kalan hastaya her iki TME ankilozu için deformite onarımı operasyonu planlandı.

Hastanın yapılan fizik muayenesinde ağız açıklığı olmadığı için Mallampati skoru değerlendirilemedi. Tiromental mesafe 2 cm idi. Hastanın tam kan sayımı, biyokimya ve koagülasyon parametreleri normaldi. Hasta yapılacak işlem konusunda bilgilendirildi ve yazılı onam alındı. Hasta ameliyat günü premedikasyon yapılmadan ameliyathaneye alındı ve standart monitorizasyon (elektrokardiyogram, noninvaziv kan basıncı, (pulse oksimetre ve solunum hızı) uygulandı ve 3 L/dk'dan nasal oksijen verilmeye başlandı. Deksmetomidinin intaravenöz 1 mcg/kg dozunda 10 dakika yükleme infüzyonunu takiben, 0.7 mcg/kg/h dozunda idame infüzyonuna geçildi. İlaç infüzyonu sırasında her iki nasal kaviteye %0.1 xylometazoline hydrochloride püskürtülmek suretiyle uygulandı. Orofarinkse 10 % lidocaine sprey ile topikal anestezi uygulandı. Hastanın sedasyon düzeyi Ramsey Sedasyon Skalası (RSS) ile değerlendirildi. Yeterli sedasyon sağlandığında (RSS=4) krikoid kırıkdan altından 22 gauge anjioket ile trakeaya girilerek, kanülün trakeada olduğundan emin olunduktan sonra, 3 cc %2'lik lidokain vokal kordların altından püskürtüldü ve eş zamanlı olarak hastanın öksürmesi sağlandı. Hastanın sağ burun deliğine %2'lik lidokain püskürtülerek lokal anestezi sağlandı ve FOB'la girilerek nasal kavite, nasofarinks ve orofarinks değerlendirildi. Vokal kordlar rahatlıkla gözlendi ve görerek ilerleme tekniği ile supraglottik bölgeye 2 cc %2'lik lidokain püskürtüldü. Hastanın muayeneye olan uyumu iyiydi. Herhangi bir öksürük, bulantı, öğürme gibi şikayeti olmadı. Vokal kordlar iyice gözlendikten sonra 7.0 tüp bronkoskobun üzerinden kaydırılarak kordların arasından geçirildi. Entübasyon sonrası 2 mg/kg pro-

pofol ve 0.6 mg/kg rokuronyum intravenöz uygulandı. Oskültasyonla akciğerlerin eşit havalandığı tespit edilip, end-tidal CO₂ ile de tüpün yeri doğrulanarak; anestezi idamesi %2 sevofluran ve %50 O₂ ve %50 hava ile sağlandı. Operasyon 8.5 saat sürdü. İhtiyaç halinde aralıklı dozlarla toplam 120 mg rokuronyum kullanıldı. Nöromusküler blok sugammadeks ile geri çevrildi. Hasta düzenli soluyup havayolu refleksleri geri dönünce ve başını 5 saniye boyunca tutabildiği gözlenince ekstübe edildi. Hastaya maske ile oksijen verildi. Solunum parametreleri pulse oksimetre ve solunum sayısı ile takip edildi. Oksijen saturasyonu oda havasında %98 düzeylerinde seyredince, hasta ayılma ünitesine alındı. Ekstübasyon sonrası solunum sıkıntısı olmayan hasta yakın takip ve gözlem için 1 gece yoğun bakım ünitesinde takip edildi. Postoperatif 4. saatte öncelikle sıvı gıdalarla beslenmeye başlayan hastada solunumsal veya hemodinamik açıdan herhangi bir komplikasyon gözlenmedi. Servise alınan hasta 3 gün sonra komplikasyonsuz taburcu edildi.

Tartışma

Temporomandibular eklem ankilozu olan hastalarda ağız açıklığı kısıtlılığı olduğu için zor havayolu öngörülen bir durumdur. Çeşitli gerekçelerle genel anestezi verilmek durumunda kalan bu hastalarda, zor entübasyon bakımından hazırlıklı olunmalıdır. Entübasyon güçlüğü veya imkansızlığı nedeniyle, bu hastalarda sıklıkla genel anestezi öncesi trakeostomi açılmaktadır. Uyanık fiberoptik nasotrakeal entübasyon, trakeostomi işlemine gerek kalmadan bu hastaların entübe edilmesini sağlayan, hasta konforunu artıran noninvaziv bir yöntemdir. Bu olguda; TME ankilozu nedeniyle daha önce iki kez opere edilmiş ve her iki ameliyatında da trakeotomi açılmak zorunda kalmış hastanın, üçüncü ameliyatında deksmedetomidin sedasyonu altında uyanık FOB ile nasotrakeal entübasyon deneyimi paylaşıldı.

Uyanık fiberoptik nasotrakeal entübasyon öngörülen zor hava yolu durumlarında iyi bir seçenektir. Ancak hasta anksiyetesi azaltılmazsa işlem esnasında öksürük, öğürme, sekresyon artışı, laringospazm gibi yan etkiler ve bu yan etkilere bağlı olarak işlemde başarısızlık gözlenebilir. Hastanın işleme uyumunu sağlamak ve konforunu artırmak için çeşitli anestezi yöntemleri kullanılmıştır [3-5]. Deksmetomidin diğer sedatif ajanlarla göre daha az solunum depresyonuna neden olur. Anksiyoliz, sedasyon ve analjezi sağladığı için invaziv işlemlerde sedasyon amacıyla kullanılmıştır [6]. Solunum üzerindeki yan etkilerinin az olması, deksmedetomidinin uyanık fiberoptik entübasyon için tercih edilen bir ajan olmasını sağlamıştır [5]. Bu olguda; bilateral çene ankilozu olması, ağız açıklığının ileri derecede sınırlı olması, daha önceki ameliyatlarına ait trakeotomi skarı varlığının, trakeostomi işlemini zorlaştıracağını düşünerek uyanık nasotrakeal fiberoptik entübasyon planlandı. Hastanın havayolu reflekslerini ve solunumunu korumak ve işlem konforunu sağlamak amacıyla deksmedetomidin infüzyonu uygulandı. Ayrıca krikotiroid membrandan bir katater vasıtasıyla girilerek vokal kordların altından lokal anestezi püskürtüldü. Hastanın öksürmesi telkin edilerek lokal anesteziğin vokal kordlara ve yukarı doğru saçılması sağlandı. Olası bir işlem başarısızlığı durumunda krikotiroid alandan havalandırabilmek için kataterin metal mandrenini geri çekip katateri işlem boyunca yerinde bırakıldı. Lokal anestezi sağlanması için yeterli süre beklenip hedeflenen sedasyon düzeyine ulaşıncaya işleme başlandı. Sahin ve ark [7] TME anki-

lozu olan mental retarde hastada uyanık FOB ile nasotrakeal entübasyonda midazolam ve ketamin kombinasyonu ile sedasyon sağlamışlar ve spontan solunumun korunmasını önermişlerdir. Abdelmanak ve ark. [5], zor havayolu olgularında uyanık entübasyonda deksmedetomidin ile sağlanan sedasyonun oldukça başarılı olduğunu saptamışlardır. Rong Hu ve ark. [1], remifentanille karşılaştırıldığında deksmedetomidinin daha iyi endoskopi skorları, daha iyi hasta memnuniyeti ve stabil hemodinami sağladığını göstermişlerdir. Bu olgumuzda, uyanık fiberoptik nasotrakeal entübasyonda deksmedetomidin infüzyonunun solunum depresyonu yapmadan ve hemodinamiyi bozmadan hasta konforunu ve memnuniyetini artırdığını tecrübe ettik.

Sugammadex, spesifik olarak steroid yapılı nondepolarizan kas gevşetici ajanları bağlayarak nöromüsküler bloğu ortadan kaldırır. Rokuronyum, vekuronyum ve pankuronyum gibi aminosteroid yapılı ajanları bağlama potansiyeline sahip olan ajan, en güçlü etkisini rokuronyum üzerinde gösterir. Bu özelliğinden dolayı, postoperatif rezidüel nöromuskular blok riskini elimine eder [8]. Bu olguda, beklenen zor havayolu olması nedeniyle postoperatif dönemde rezidüel blok ve buna bağlı reentübasyon ihtimalini göz önüne alarak sugammadex kullanılması tercih edildi. Sugammadex sonrası nöromüsküler bloğu geri dönen ve kısa sürede düzenli solumaya başlayan hasta, tidal volümü yeterli olduğunda ekstübe edildi. Ekstübasyon öncesi ve sonrası herhangi bir yan etki saptanmadı.

Sonuç olarak; TME ankilozu gibi ağız açıklığının kısıtlı olduğu ve orotrakeal entübasyonun güç veya imkansız olduğu hastalarda, uyanık FOB ile yapılan nasotrakeal entübasyon iyi bir seçenektir. Bu hastaların işleme uyumu, solunum depresyonu yapmadan, sedasyon, analjezi ve anksiyoliz sağlayan bir ajan olan deksmedetomidin ile konforlu bir şekilde sağlanabilir. Ayrıca zor havayolu olan olgularda nöromüsküler bloğu geri çevirmek için sugammadex kullanılmasının, postoperatif dönemde güvenli havayolu sağlanmasına katkıda bulunacağını düşünmekteyiz.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Hu R, Liu JX, Jiang H. Dexmedetomidine versus remifentanyl sedation during awake fiberoptic nasotracheal intubation: a double-blinded randomized controlled trial. *J Anesth* 2013;27(2):211-7.
2. Woodward LJ, Kam PC. Ankylosing spondylitis: recent developments and anaesthetic implications. *Anaesthesia* 2009;64(5):540-8.
3. Cafiero T, Esposito F, Fraioli G, Gargiulo G, Frangiosa A, Cavallo LM, et al. Remifentanyl-TCI and propofol-TCI for conscious sedation during fiberoptic intubation in the acromegalic patient. *Eur J Anaesthesiol* 2008;25(8):670-4.
4. Scher CS, Gitlin MC. Dexmedetomidine and low-dose ketamine provide adequate sedation for awake fiberoptic intubation. *Can J Anaesth* 2003;50(6):607-10.
5. Abdelmalak B, Makary L, Hoban J, Doyle DJ. Dexmedetomidine as sole sedative for awake intubation in management of the critical airway. *J Clin Anesth* 2007;19(5):370-3.
6. Canpolat DG, Esmaoglu A, Tosun Z, Akn A, Boyaci A, Coruh A. Ketamine-propofol vs ketamine-dexmedetomidine combinations in pediatric patients undergoing burn dressing changes. *J Burn Care Res* 2012;33(6):718-22.
7. Sahin L, Cesur M, Mizrak A, Gül R, Berberoğlu Ö. Temporo-mandibular Eklem Ankilozunda Havayolu Yönetimi. *J Clin Anal Med* 2012;3:106-8.
8. Bom A, Bradley M, Cameron K, Clark JK, Van Egmond J, Feilden H, et al. A novel concept of reversing neuromuscular block: chemical encapsulation of rocuronium bromide by a cyclodextrin-based synthetic host. *Angew Chem Int Ed Engl* 2002;41(2):266-70.

How to cite this article:

Canpolat DG, Yıldırım MD, Doğruel F. Dexmedetomidine Use for Awake Nasotracheal Fiberoptic Intubation: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 488-90.



Case Report: Calcific Aortic Valve Stenosis Due to Central Retinal Artery Occlusion

Olgu Sunumu: Kalsifik Aort Kapak Stenozuna Bağlı Gelişen Santral Retinal Arter Tıkanıklığı

Santral Retinal Arter Tıkanıklığı / Central Retinal Artery Occlusion

Ender Şener¹, Özdemir Özdemir²

¹Tokat Medicalpark Hastanesi Göz Hastalıkları Bölümü, Tokat,

²Zekai Tahir Burak Kadın Sağlığı Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Göz Hastalıkları, Ankara, Türkiye

Özet

Bu olguda, kalsifik aort kapak stenozu nedeniyle spontan gelişen santral retinal arter tıkanıklığı (SRAT) görülen 48 yaşında bir erkek hasta rapor edildi. Hastanın başka sistemik hastalığı yoktu. SRAT genellikle ileri yaşta ve sistemik risk faktörleri bulunan kimselerde görülür. SRAT; ani, ağrısız, ciddi görme kaybıyla sonuçlanır. Elli yaş altında SRAT çok nadir görülmesine rağmen özellikle aort kalp kapak bozukluğu ve kalsifik aort stenozu bulunan genç yaştaki kalp hastalarında SRAT gelişebilmektedir.

Anahtar Kelimeler

Santral Retinal Arter Tıkanıklığı; Aort Kapak Stenozu; Ani Görme Kaybı

Abstract

In this case, it was reported that a 48 year old male patient with spontaneous central retinal artery occlusion (CRAO) due to calcific aortic valve stenosis. He had no other systemic disease. CRAO usually occurs in elder patients with systemic risk factors. CRAO results in sudden, painless and severe vision loss. Although, CRAO is seen rarely under 50 year old, it may appear in younger patient with aortic valve disease and calcific aortic valve stenosis caused cardiac disease.

Keywords

Central Retinal Artery Occlusion; Aortic Valve Stenosis; Sudden Loss of Vision

DOI: 10.4328/JCAM.2580

Received: 21.05.2014 Accepted: 14.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 491-3

Corresponding Author: Ender Şener, Vali Zekaigümüşiş Cad. No: 29 Medicalpark Hastanesi Göz Hastalıkları Bölümü, PK: 60000, Merkez, Tokat, Türkiye.

GSM: +905055116116 E-Mail: endersener@msn.com

Giriş

Santral retinal arter tıkanıklığı ilk kez 1859 da Von Graefe tarafından oftalmoskopi ile izlenerek çizilmiş ve yayınlanmıştır[1]. SRAT'nın yaklaşık 100.000 de 1,3 oranında görüldüğü tahmin edilmektedir[2]. Kalsifik retinal embolizm, görme kaybının nadir bir sebebidir ve genellikle kalsifik kalp kapaklarından özellikle de kalsifik aort stenozisinden embolizasyonla meydana gelir. Kalsifik retinal embolizasyonla ilgili literatürdeki veriler bazı izole olgu sunumları ve küçük serilerle sınırlıdır. Biz burada aort stenozuna bağlı SRAT gelişen 48 yaşında bir erkek hastayı rapor ediyoruz.

Olgu Sunumu

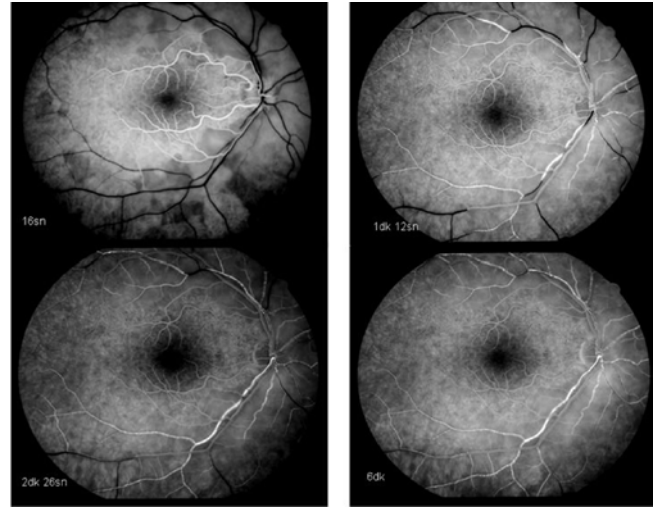
Kırk sekiz yaşında erkek hasta; kardiyoloji bölümüne nefes darlığı, egzersiz intoleransı ve bulanık görme şikayetiyle müracaat etti. Öyküsünden hastanın yaklaşık beş yıldır devam eden nefes darlığı olduğu, bir iş yaparken çabuk yorulduğu ve iki gündür bulanık gördüğü öğrenildi. Hastanın özgeçmişinde hipertansiyon, diabetes, hiperlipidemi veya obezite olmadığı saptandı. Hasta sigara içmiyordu. Hastanın soygeçmişinde, ailesinde erken yaşta kalp hastalığı ve anne ile babasında hipertansiyon öyküsü vardı. Fizik muayenede: nabız 72 atım/dakika, düzenli, kan basıncı 100/70mmHg idi. Elektrokardiyografide normal sinüs ritmi vardı. Laboratuvar incelemelerinde: biyokimya normal sınırlarda, hemogram normal sınırlarda, aktive parsiyel tromboplastin zamanı (APTT) 30.1, protrombin zamanı (PT) 14.3, internasyonal normalized ratio (INR) 1.11 ve protrombin aktivitesi 85 bulundu. Dopler ekokardiyografide (EKO): sol ventrikül çapı ve sistolik fonksiyonları normal, ejeksiyon fraksiyonu % 65, sol ventrikül konsantrik hipertrofisi, ciddi aort darlığı ve aort kapaklarında kalsifikasyon rapor edildi.

Aynı gün yapılan göz muayenesinde her iki gözün düzeltilmiş en iyi görme keskinliği snellen eşeli ile 10/10, göz içi basıncı sağda 19 mmHg, solda 21 mmHg bulundu. Sağ pupillada direkt ışık refleksi zayıf, indirekt ışık refleksi normaldi. Yapılan görme alanı muayenesinde sağda konsantrik daralma tespit edildi, sol normal bulundu. Fundus incelemesinde sağ gözde retinada iskemik ödem nedeniyle tipik soluk beyaz görünüm vardı. Bu görünüm silioretinal arterin beslediği normal görünümdeki makula ile arkad kenarından keskin olarak ayrılıyordu. Silioretinal arter korunduğu için makulada Japon bayrağı görünümü yoktu. Retinal kan akımında segmentasyon mevcuttu (Resim 1). Hastaya yapılan fundus florescein anjiyografide (FFA); sağ gözde damarsal dolum defektleri, retinal arter dolum süresinde ve arteriyo-venöz geçiş süresinde uzama, kan akımında segmentasyon ve SRAT tespit edildi fakat silioretinal arter korunmuştu (Resim 2). Sol göz FFA bulguları normal olarak değerlendirildi. Göz hastalıkları kliniğinde hastaya antiglokomatöz tedavi [timolol maleat % 0.50, 2X1 ve oral karbonik anhidraz inhibitörü (asetozolamide 250 mg, 4X1)] başlandı. Hastaya oküler masaj uygulandı ve serviste takibe alındı.

Ertesi gün yapılan koroner anjiyografi tetkikinde, sağ koroner arterin dominant besleyici arter olduğu ve koroner anjiyografinin normal bulunduğu bildirildi. Kalp damar cerrahisi tarafından hastaya aort kapak replasmanı planlandı. Hastanın takiplerinde birinci aydaki kontrolünde görme keskinliğinin korunduğu fakat görme alanındaki konsantrik daralmada bir düzelme olmadığı görüldü. Bu olgu sunumu Helsinki Deklerasyonu Prensipleri'ne



Resim 1. Renkli fundus fotoğrafı. Silioretinal arterin beslediği santral alan normal görünümde. Retinada iskemik ödem nedeniyle tipik soluk beyaz görünüm mevcut.



Resim 2. FFA bulguları: Damarsal dolum defektleri, retinal arter dolum süresinde ve arteriyo-venöz geçiş süresinde uzama, segmentasyon ve SRAT izleniyor. Silioretinal arterin korunduğu görülüyor

uygun olarak ve hastanın "bilgilendirilmiş olur"u alınarak hazırlanmıştır.

Tartışma

SRAT ani ve ciddi görme kaybıyla sonuçlanan oftalmik acil bir durumdur. SRAT hastalarının çoğu yaşlı ve aterosklerotik hastalığın yaygın risk faktörlerini içeren kişilerdir [3]. SRAT'ın en sık nedeni embolilerdir. Retinal arter embolileri genellikle üç tiptir: kalsifik, kolesterol ve trombosit-fibrin kaynaklı olanlar[4]. Bizim olgumuz 48 yaşındaydı ve aterosklerotik bir hastalığı, hipertansiyonu, diabeti ya da hiperlipidemisi yoktu. Hastanın hemogramı, biyokimya incelemeleri, APTT, protrombin zamanı, INR ve protrombin aktivitesi normaldi ancak hastada aort kapak hastalığı bulunuyordu.

Aort stenozunda retinal arter embolizasyonu nadir görülen fakat ciddi bir komplikasyondur[5]. Aort stenozu bulunan hastalarda, kalsifik embolizm kardiyak cerrahi veya kalp kateterizasyonu sonrası görülebilir fakat aort stenozunda spontan kalsifik embolizm nadirdir. Inoue ve ark. [6] aort kapak stenozu bulunan adolesan çağıdaki bir hastada transkateteryal balon aortik valvüloplastiyi takiben gelişen santral retinal arter tıkanıklığı vakası bildirmiştir. Rodriguez ve ark. [7] ise kalsifiye aort kapak stenozu olan bir hastada retinal arterde spontan gelişen kalsifik

embolizasyon olgusunu rapor etmiştir. Yine literatürde Mannino ve ark. [5] kalsifik aort kapak hastalıklarına ikincil, genç hastalarda akut gelişen retinal arter tıkanıklığı olguları tanımlamışlar ve bu nedenle erken cerrahi müdahale tartışmalarının çok rasyonel olduğunu savunmuşlardır. Bizim olgumuz da literatürde az sayıdaki bu olgularla benzerlik göstermektedir. Özellikle bu hastanın genç yaşta olması ve santral retinal arter tıkanıklığı gelişimi için ek risk faktörleri taşımamasına rağmen spontan retinal arter tıkanıklığı gelişmesi dikkat çekmektedir.

Sunulan bu olguda silioretinal arter korunmuştu. Muci-Mendoza ve ark. [8] kalsifik kalp kapak hastalığı bulunan bir hastada silioretinal kollateral gelişimini belgelemiştir. Bu olay retinal arter oklüzyonu sonrası oluşmuştur ve yazarlar retinal arter oklüzyonunun kalsifik kalp kapaklarından kalsifik embolizm yoluyla oluştuğuna inanmaktadırlar. Biz olgumuzdaki silioretinal arterin toplamda görülen normal varyasyona bağlı olduğunu düşünüyoruz. Kalsifik aort stenozu bulunan kişilerde başka bir sistemik risk faktörü olmasa bile spontan santral retinal arter tıkanıklığı gelişebilir. Bu olguda silioretinal arter varyasyonu sayesinde santral görme korunmuştu fakat SRAT genellikle ciddi görme kaybıyla sonuçlanır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. vonGraefe A. Über embolie der arteria centralis retinae als ursache plötzlicher erblindung. Graefes Arch Ophthalmol 1859;5:136-85.
2. Leavitt JA, Larson TA, Hodge DO, Gullerud RE. The incidence of central retinal artery occlusion in Olmsted, Minnesota. Am J Ophthalmol 2011;152(5):820-3.
3. Varma DD, Cugati S, Lee AW, Chen CS. A review of central retinal artery occlusion: clinical presentation and management. Eye 2013;27(6):688-97.
4. Hayreh SS, Podhajsky PA, Zimmernan MB. Retinal artery occlusion: associated systemic and ophthalmic abnormalities. Ophthalmology 2009;116(10):1928-36.
5. Mannino G, Romano M, Calanchini M, Mannino C, Cascone NC. Branch retinal artery embolization due to calcific aortic valve stenosis. Eur J Ophthalmol 2010;20(3):625-8.
6. Inoue H, Muneuchi J, Ohno T, Arikawa A, Ishibashi T, Hara T. Central retinal artery occlusion following transcatheter balloon aortic valvuloplasty in an adolescent with aortic valvular stenosis. Pediatr Cardiol 2008;29(4):830-3.
7. Rodriguez Suarez ML, Trabanco IM, Moris C, Burgueno C, Lambert JL, Cortina A. Spontaneous calcific embolization in calcified aortic valve stenosis. Rev Esp Cardiol 1992;45(5):357-9.
8. Muci-Mendoza R, Parsa CF, Hoyt WF. Development of cilioretinal collaterals in a patient with calcific valvular heart disease. Arch Ophthalmol 1998;116(2):255.

How to cite this article:

Şener E, Özdemir Ö. Case Report: Calcific Aortic Valve Stenosis Due to Central Retinal Artery Occlusion. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 491-3.



Oral Angioleiomyoma of the Lower Lip: A Case Report

Alt Dudakta Anjiyoleiomyom: Olgu Sunumu

Oral Anjiyoleiomyom / Oral Angioleiomyoma

İbrahim Damlar¹, Halil İbrahim Kısa², Ufuk Tatlı², Ahmet Altan¹, Sibel Hakverdi³

¹Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Mustafa Kemal University, Hatay,

²Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Çukurova University, Adana,

³Department of Pathology, Faculty of Medicine, Mustafa Kemal University, Hatay, Türkiye

Özet

Leiomyom sıklıkla uterine miyometriyum, gastrointestinal sistem, deri ve alt ekstremitelerde görülen, benign düz kas tümörüdür. Leiomyom nadiren ağız boşluğunu etkiler. Anjiyoleiomyom (vasküler leiomyom) leiomyomun histolojik bir tipidir ve genellikle histopatolojik inceleme ile tespit edilir. Bu olgu sunumunda 35 yaşındaki erkek hastada alt dudakta görülen anjiyoleiomyom bildirildi. Cerrahi eksizezyon sonrası, hematoksilin-eozin ve düz kas aktin boyama ile anjiyoleiomyom tanısı doğrulandı.

Anahtar Kelimeler

Anjiyoleiomyom; Dudak; Olgu Sunumu

Abstract

Leiomyoma is a benign smooth muscle tumor that occurs most frequently in the uterine myometrium, gastrointestinal tract, skin and lower extremities. Leiomyoma rarely affects the oral cavity. Angioleiomyoma (vascular leiomyoma) is a histological subtype of the leiomyoma. The diagnosis is commonly determined by histopathological studies. This case report shows a 35-year-old male patient with a lesion of the lower lip. After surgical excision, hematoxylin-eosin and smooth muscle actin staining confirmed the diagnosis of angioleiomyoma.

Keywords

Angioleiomyoma; Lip; Case Report

DOI: 10.4328/JCAM.2544

Received: 09.05.2014 Accepted: 20.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 494-6

Corresponding Author: Ahmet Altan, Tayfur Sokmen Kampusu 31100 Antakya, Hatay, Turkey.

T.: +90 3262291000 E-Mail: dt.ahmetaltan@gmail.com

Introduction

Leiomyoma is a benign smooth muscle tumor that can appear any location, being the most frequent site the female genital tract (95%), followed by skin (3%) and gastrointestinal tract (1.5%). Approximately 1% of leiomyoma occur in head and neck structure [1]. Only 0.065% of the leiomyomas had an intraoral location, caused by the lack of smooth muscle at this site [2]. When detected they are typically found on lips (lower/upper), tongue, palate (soft/hard), buccal mucosa and are rarely gingiva, buccal or labial sulcus, floor of mouth and mandible [3]. Most of the angioleiomyomas are well-defined, typically painless and slow growing lesions, with less than 2 cm in diameter and a color which can vary between white to blue [2,3]. In terms of clinical presentation, it is very difficult to differentiate a leiomyoma from other mesenchymal tumors: the diagnosis is mainly made by histopathological examination [3]. Surgical excision is the main treatment of leiomyoma and recurrences are rare.

Case Report

A 35-year-old man was referred to our faculty clinic of Dentistry Department of Oral and Maxillofacial Surgery because of a lesion in his right lower lip, which had been there for about five months. During clinical examination, we noticed an exophytic, nodular, red, well outlined lesion measuring about 2.5 cm x 3 cm in diameter, located on right lower lip (Figure 1). The patient had no other dentoalveolar symptoms and no sign of local infection. He was not taking any drugs, but he was smoker and drinker. His medical and family history was not remarkable.



Figure 1. Clinical appearance of the lesion showing exophytic, nodular, red-colored, and well-outlined characteristics; located on the right lower lip.

The lesion was surgically excised under general anesthesia with scalpel. An elliptic incision was made to fully enucleate the lesion along with the overlying mucosa (Figures 2a and 2b). Antibiotic therapy was given to the patient: amoxicillin 1 g. per IV 30 min before the surgery and 500 mg / 8 h per oral during following 6 days. An analgesic (naproxen sodium 275 mg) and antibacterial chlorhexidine gluconate rinse (0.12%) was prescribed for following 1 week. The specimen was fixed in 10% formalin solution. Histological examination that made with hematoxylin-eosin (Figure 3a) and smooth muscle actin staining (Figure 3b) revealed the diagnosis of angioleiomyoma. Necrosis, atypical mitosis and pleomorphism weren't observed

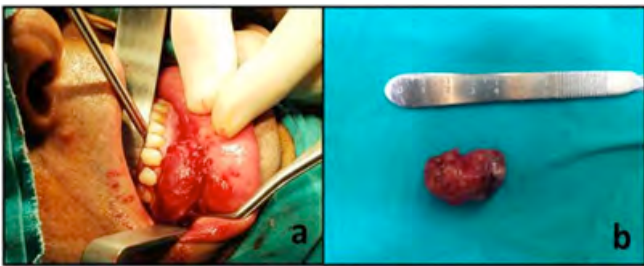


Figure 2. An elliptic incision was made to fully enucleate the lesion along with the overlying mucosa(A). Clinical appearance of the excised lesion measuring about 2.5 x 3 cm in diameter(B).

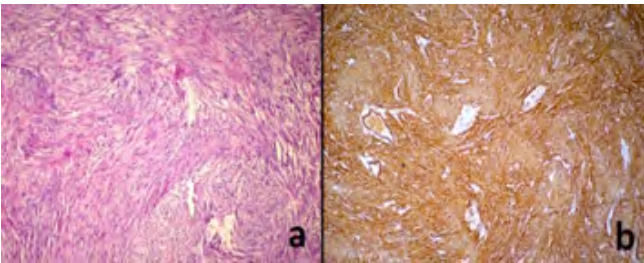


Figure 3. The tumor is formed by interlacing bundles of smooth muscle cells (HE x 200)(A). The tumor cells are immunoreactive for smooth muscle actin (SMA x 100)(B).

in the histological examination. The postoperative course of the patient was uneventful with 7 days of follow-up. The issue was completely healed and there was no sign of scar. There was no recurrence at 6 months of follow-up.

Discussion

Oral leiomyomas may appear at any age, but the greatest prevalence is in the 40-59 years age groups with gender preference for female [4]. In this report the patient was a 35-year-old male. Oral cavity leiomyomas are uncommon lesions, representing 0.016% to 0.065% of all leiomyomas [3,4]. Leiomyomas are identified by their smooth muscle cell lineage and are histomorphologically classified as either solid, angioleiomyoma or epitheloid types. According to World Health Organization classification of tumors of soft tissue (2002), the most frequent type is angioleiomyoma with a 74%, followed by solid leiomyomas with a 25% and there is only one case of an epitheloid leiomyoma described in the literature [5]. Leiomyomas are rare in the oral cavity because of lack of smooth muscle. They are typically found on lips, tongue, palate and buccal mucosa. Brooks et al [3] showed that the most frequently reported site was the lip (48.6%), followed by the palate (21.1%), buccal mucosa and tongue (each 9.2%), mandible (8.3%) and buccal sulcus, labial sulcus, floor of mouth, and gingiva (each 0.9%). Although most mucosal lesions varied in size from a few millimeters to 2 cm, our patient's lesion is greater than 2 cm. Although angioleiomyomas are vascular lesions, only 55.9% of cases appeared red, blue or purple, the remainders were gray, white, or color of normal mucosa [3]. Oral angioleiomyomas are generally well-defined, nodular, painless, slowly enlarging lesions. However, some central lesions can be painful [6]. The clinical differential diagnosis relevant to angioleiomyoma usually includes other benign mesenchymal tumors (fibroma, neurofibroma, lipoma or leiomyosarcoma), salivary gland neo-

plasms (mucoccele, pleomorphic adenoma), vascular tumors (eg lymphangioma, hemangioma, pyogenic granuloma) and soft tissue cysts (dermoid cysts). When the tumor located in hard palate, adjacent to teeth can be confused with a periodontal lesion [3].

The treatment of choice for oral angioleiomyomas is surgical excision. In spite of vascular component, profuse bleeding during removal is rarely seen [3,7]. Despite rare, recurrence has been reported. Thus, it is important to obtain a complete resection in order to avoid recurrences. About 5% of leiomyomas show local recurrence. This has been attributed to incomplete excision or deeply situated lesions. Until now no case of malignant transformation has been reported in literature [7].

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

References

1. Campelo VES, Neves MC, Nakanishi M, Voegels RL. Nasal cavity vascular leiomyoma: a case report and literature review. *Braz J Otorhinolaryngol* 2008;74(1):147-50.
2. Lloria-Benet M, Bagan JV, Lloria de Miguel E, Borja-Morant A, Alonso S. Oral leiomyoma: a case report. *Med Oral* 2003;8(3):215-9.
3. Brooks JK, Nikitakis NG, Goodman NJ, Levy BA. Clinicopathologic characterization of oral angioleiomyomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94(2):221-7.
4. Gonzalez Sanchez MA, Colorado Bonnin M, Berini Aytés L, Gay Escoda C. Leiomyoma of the hard palate: a case report. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2007;12(3):221-4.
5. Leung K, Wong DY, Li W. Oral leiomyoma: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1990;48(7):735-8.
6. Bhatt AP, Brave VR. Angiomyoma of the mandible: a case report. *J Indian Dent Assoc* 1990;61(12):298-9.
7. VG Mahima, K Patil, HS Srikanth. Recurrent oral angioleiomyoma. *Contemp Clin Dent* 2011;2(2):102-5.

How to cite this article:

Damlar İ, Kısa Hİ, Tatlı U, Altan A, Hakverdi S. Oral Angioleiomyoma of the Lower Lip: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 494-6.



Tandoor Heat Related Symmetric Squamous Cell Carcinoma: Case Report

Tandır Sıcağı İle İlişkili Simetrik Skuamoz Hücreli Karsinom: Vaka Sunumu

Simetrik Skuamoz Hücreli Karsinom / Symmetric Squamous Cell Carcinoma

Hatice Uce Özko¹, Ömer Çalka¹, Göktürk Dere¹, İrfan Bayram²
¹Dermatoloji AD, ²Patoloji AD, Yüzüncü Yıl Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Van, Türkiye

Özet

Derinin skuamoz hücreli karsinomu [SHK] keratinize epitelyum hücrelerinin malin tümörüdür. Melanomdan sonra ikinci sıklıkta ölüme yol açan deri kanseridir. SHK için tanımlanmış risk faktörleri yaş, erkek cinsiyet, güneş ışığına maruz kalma, prekanseröz lezyon varlığı ve immünsüpresyondur. Diğer etiyolojik faktörlerden biride bazı toplumlarda ayrı bir antite olarak bildirilmiş kronik ısı maruziyetidir. Tandır Doğu ve Güneydoğu Anadolu da ekmek pişirmek amacıyla kullanılan derin çukur yapısında bir fırındır. Uzun süreli tandır kullanan bayanlarda eller ve yüz yaklaşık 450°C 'ye varan sıcaklığa maruz kalır. Bu yazıda her iki el bileğinde SHK gelişen 71 yaşında bayan hasta sunuyoruz. Hasta yaklaşık 40 yıl tandır sıcaklığına maruz kalmıştı. Hastamızda tekrarlayan ve uzun süren ısı maruziyetinin malin dönüşüme katkıda bulunduğunu düşündük. Tandır sıcaklığına bağlı gelişmiş simetrik SHK olgusunu ilk kez tanımlıyoruz.

Anahtar Kelimeler

Skuamoz Hücreli Karsinom; Simetrik Tutulum; Tandır Sıcağı

Abstract

Skin squamous cell carcinoma (sSCC) is a malignant tumor of keratinizing epidermal cells. It is the second leading cause of death after melanoma. The risk factors for SCC include older age, male sex, sun exposure, precancerous lesion and immunosuppression. Other etiological factors responsible in the development of cutaneous SCC in some societies include chronic exposure to thermal radiation. Tandoor is used specifically in the eastern and southeastern regions of Turkey for made bread. Hands and face are subjected to a temperature of approximate 450°C for a lengthy period while using the tandoor. In this paper we presented a 71 years old female patient with squamous cell carcinoma in her both wrists. She was exposed to tandoor heat for approximately 40 years. We think the continuous and repetitive high-temperature might have significantly contributed to development of the neoplasia in our patient. Tandoor heat related bilateral SCC in our present case report appears to be first reported in literature.

Keywords

Squamous Cell Carcinoma; Symmetrical Involvement; Tandoor Heat

DOI: 10.4328/JCAM.2608

Received: 05.06.2014 Accepted: 20.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 497-9

Corresponding Author: Hatice Uce Özko, Yüzüncü Yıl Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Dermatoloji AD, 65300 Van, Turkey.

T.: +90 4322150471/6798 F.: +90 4322167519 E-Mail: drhaticeuce@gmail.com

Giriş

Skuamöz hücreli karsinom (SHK), bazal hücreli karsinomdan sonra en sık görülen nonmelanotik deri kanseridir [1]. Kronik ultraviyoleye (UV) maruz kalma cilt kanserlerinin en sık nedenidir [2]. Sıcağa uzun süre maruz kalma sonrası SHK gelişmiş bazı olgular bildirilmiştir [3,4]. SHK normal deriden gelişebilmekle birlikte sıklıkla öncü lezyonlar zemininde gelişir [2,5]. SHK' nın sıklıkla görüldüğü lokalizasyonlar baş, boyun, kollar gibi güneşe fazla maruz kalan alanlardır [1,6,7]. Multiple primer kutanöz SHK oldukça nadir bir durumdur. SHK' nın çok odaklı gelişimi, primerinin yayılması veya diğer malin durumlardan gelişen yaygın deri metastazı nedeniyle oluşabilir [1]. Her iki el bileğine simetrik olarak yerleşen ve tandır sıcaklığına bağlı geliştiği düşünülen SHK olgusunu daha önce literatürde bildirilmediği için sunmayı uygun bulduk.

Olgu Sunumu

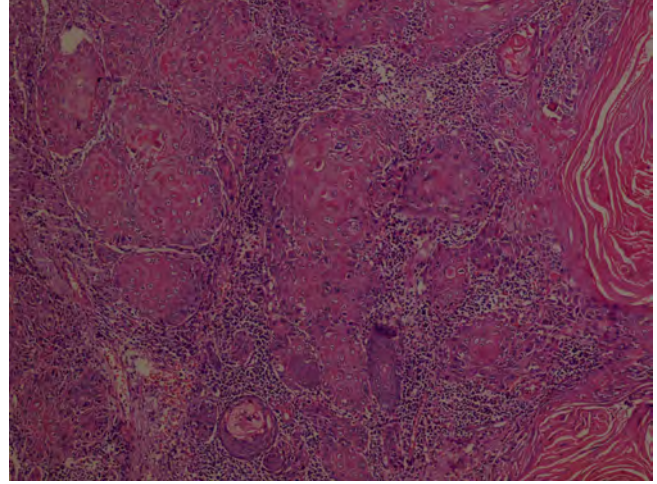
Polikliniğimize 71 yaşında bayan hasta el bileklerinde iki yıldır iyileşmeyen yara nedeniyle başvurdu. Hastanın el bileklerindeki yaralar küçük kabuklu yaralar şeklinde başlamış ve son 2-3 ay içerisinde hızla büyümüş. Ayrıca bir yıl öncesinde burun üzerinde başlayıp, halen iyileşmeyen küçük bir yarası olmuş. Bu şikâyetleri için daha önce adını bilmediği kremler kullanmış ancak fayda görmemiş. Öncesinde herhangi bir travma, yanık veya nedbe öyküsü yokmuş. Hasta köyde yaşıyormuş ve yaklaşık 40 yıl boyunca haftada 2-3 kez tandırda ekmek pişirmiş. Yapılan dermatolojik muayenede her iki el bileği dış yüzünde yaklaşık 5x4 cm ebatlı kenarları eritemli, kabarık ve ülser plaklar ile burun sağ kanadı üzerinde yaklaşık 1x0,5 cm ebatlı ortasında siyah renkli kurut bulunan atrofik plak mevcuttu (Resim1). Sedi-



Resim 1. Her iki el bileği dış yüzünde yaklaşık 5x4 cm ebatlı kenarları eritemli, kabarık ve ülser plaklar.

mentasyon hızı 45 mm/h, CRP 21 mg/L olarak değerlendirildi. Diğer rutin laboratuvar testleri doğaldı. Yapılan histopatolojik

incelemede kronik inflamasyon bulguları gösteren stroma içinde değişik büyüklükte düzensiz infiltratif adacıklar oluşturan, yer yer keratin incileri yapan diskeratotik ve pleomorfik atipik keratinositler gözlendi (Resim2). Biyopsi sonucu iyi diferansiye skuamöz hücreli karsinom olarak değerlendirildi. Hastanın lezyonları kriyoterapi ve diğer medikal tedaviler için uygun olmadığından dolayı cerrahi tedavi önerildi ve plastik cerrahiye yönlendirildi. Fakat hastanın cerrahi tedaviyi kabul etmediği ve radyoterapi planlandığı öğrenildi.



Resim 2. Kronik inflamasyon bulguları gösteren stroma içinde değişik büyüklükte düzensiz infiltratif adacıklar oluşturan, yer yer keratin incileri yapan diskeratotik ve pleomorfik atipik keratinositler (H&E x100)

Tartışma

Kutanöz skuamöz hücreli karsinomlar tüm cilt kanserlerinin yaklaşık %20 sini oluşturmaktadır. Primer kutanöz SHK'lar genellikle vücudun güneşe maruz kalan bölgelerinden gelişir, başta UV-B olmak üzere kronik UV' ye maruz kalma cilt kanserlerinin primer nedenidir [2]. SHK normal deriden de gelişebilir. Ancak sıklıkla kronik iyileşmeyen yaralar, yanık skarları, diskoid lupus eritematozus, eroziv liken planus, porokeratozis, aktinik keratoz, Bowen hastalığı, lupus vulgaris, radyasyon dermatiti gibi öncü lezyonlar zemininde geliştiği bilinmektedir [2,5]. Bizim vakamızın hikâyesinde öncü lezyon yoktu. Fakat hastanın yaklaşık 40 yıl tandır sıcaklığına maruz kalma öyküsü vardı. Literatürde sıcaklıkla ilişkilendirilmiş çok sayıda vaka olmakla birlikte simetrik tutulum olan vakaya rastlanmadı [3,4]. Hastanın el bileklerinde simetrik SHK olması tandır sıcaklığının kuvvetli etiyolojik sebep olduğunu düşündürdü.

İleri yaş, erkek cinsiyet, UV radyasyon, immünoşüpresyon, human papilloma virus enfeksiyonu, prekanseröz lezyonlar, skarlar, oral psoralen, arsenik gibi kimyasallara maruz kalma risk faktörleridir. Hindistan, Çin, Kaşmir gibi bazı bölgelerde ısınmak amacıyla kullanılan bazı aletlere bağlı gelişen SHK olguları bildirilmiştir. Aletin adı verilerek özel adlandırılmalar yapılmıştır. Örneğin Kaşmir bölgesinde kangri kanser şeklinde spesifik SHK isimlendirmeleri yapılmıştır [4]. Albinizm, epidermodisplazi ver-rüsiformis, kseroderma pigmentosum gibi genetik bozukluklar SHK ye zemin hazırlar [1]. Kseroderma pigmentosum hastaları genel popülasyona göre 1000 kat daha fazla deri kanseri geliştirme riskine sahiptir ve kanserlerin başlama yaşı 50 yaş azalmıştır. Baş, boyun ve kol gibi güneşe maruz kalan alanlarda SHK daha sık görülür [1,6,7]. Vakamızda gözlemediğimiz risk faktör-

leri ileri yaş, UV ve tandır sıcaklığına maruz kalma şeklindeydi. Lezyonun özellikle el bileklerinde simetrik olması kronik ısıya maruz kalmanın en önemli faktör olduğunu gösterir.

En yaygın histopatolojik patern, yaklaşık %46 oranında olan iyi diferansiye formdur [8]. Pleomorfizm ve mitozisli nükleus içeren parlak eozinofilik keratinositler bulunur. Keratin incileri ve apoptotik hücreler sıklıkla belirgindir. İnvazyon dermis içinde değişen seviyelerde serbest uzanan ayrılmış tümör adaları olarak görülür. Kötü diferansiye tümörlerde perinöral infiltrasyon ve sklerotik stromal değişiklikler belirgindir [5]. Olgumuzun histopatolojik incelemesi iyi diferansiye SHK olarak değerlendirildi. Kutanöz SHK, %3-8 oranında lokal nüks ve %4-5 oranında metastaz yapabilir [6]. Lokal metastaz başlangıçta yüzeysel, sonra derin lenf bezlerine lenfatikler yoluyla olur [1]. Uzak metastaz hematojen yayılma ile çoğunlukla akciğer, karaciğer, beyin, deri ve kemiğe olur [1,9]. Tümörün düşük veya yüksek riskli olduğunu daha iyi tanımlamak için klinik çap ve patoloji raporundaki kalınlığı bildirmek önemlidir. Tümör çap ve kalınlığı lokal nüks için önemli bir prognostik faktördür. Derin yapılara invazyon, kulakta yerleşmiş olması, kötü diferansiyasyon, tümör çap ve kalınlığı ise metastaz için önemli prognostik faktörlerdir [6]. Ayrıca skar zemininde gelişen SHK, normal deride gelişene göre daha kötü prognozudur [8,9].

Kutanöz SHK tedavisinde cerrahi sırasında frozen dışında Mohs mikrografik cerrahi de yapılabilir. Bu yöntem görünen tüm tümörün dilimlenmesi halinde çıkarılması ve bu sayede lezyonun gerçek boyutları ve üç boyutlu şeklinin belirlenmesi prensibine dayanır. Eksize edilen dokunun alt sınırından horizontal frozen kesit örnekleri mikroskopik olarak incelenir ve tümör temizlenmesi mikroskopik olarak doğrulanana kadar cerrahi müdahale devam eder [10]. Radyoterapi ve kemoterapi adjuvan olarak veya yaygın olgularda palyatif amaçlı kullanılabilir [9]. SHK'nın nüks lezyonlarında sıkça metastaz olması nedeniyle, bu hastalarda lenf nodları çok iyi değerlendirilmelidir. Klinik olarak var olan lenf nodları için bölgesel lenf nodu küretajı kesinlikle önerilir [11]. Son zamanlarda, intralezyonel veya intravenöz kemoterapi ile elektrik akımından oluşan elektrokemoterapi, metastatik deri nodüllerinde yeni bir tedavi yöntemi olarak önerilmektedir [10].

Bu yazıda tandır sıcaklığına bağlı gelişmiş simetrik yerleşimli SHK olgusunu anlattık. Tandıra bağlı gelişmiş SHK literatürde hiç görülmediği için olguyu sunmayı uygun bulduk.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Kaur J, Sharma N, Sharma S. Multiple cutaneous squamous cell carcinomas: primary carcinomas versus cutaneous metastasis. J Cancer Res Ther 2012;8(2):300-2.
2. Ljubenovic MS, Ljubenovic DB, Binic II, Jankovic AS, Jancic SA. Cutaneous tuberculosis and squamous-cell carcinoma. An Bras Dermatol 2011;86(3):541-4.
3. Wolfe CM, Green WH, Cognetta AB Jr, Hatfield HK. Heat-induced squamous cell carcinoma of the lower extremities in a wildlands firefighter. J Am Acad Dermatol 2012;67(6): 272-3.
4. Wani I. Kangri cancer. Surgery 2010;147(4):586-8.
5. Rigel DS, Cockerell CJ, Carucci J, Wharton J. Actinic Keratosis, Basal Cell Carcinoma and Squamous Cell Carcinoma. In: Callen PJ, Horn TD, Mancini AJ, Salasche SJ, Schaffer JV, Schwarz T, Stingle G, Stone MS, editors. Dermatology. 2nd ed. Spain: Mosby -Elsevier; 2008. p.1643-50.
6. Roozeboom MH, Lohman BG, Westers-Attema A, Nelemans PJ, Botterweck AA, van Marion AM, et al. Clinical and histological prognostic factors for local recurrence and metastasis of cutaneous squamous cell carcinoma: analysis of a defi-

ned population. Acta Derm Venereol 2013;93(4):417-21.

7. Alymlahi E, Dafiri R. Bilateral facial squamous cell carcinoma in an 18-month-old girl with xeroderma pigmentosum. J Postgrad Med 2005;51(2):128-30.

8. Adinarayan M, Krishnamurthy SP. Clinicopathological evaluation of nonmelanoma skin cancer. Indian J Dermatol 2011; 56(6):670-2.

9. Cocchetto V, Magrin P, de Paula RA, Aidé M, Monte Razo L, Pantaleão L. Squamous cell carcinoma in chronic wound: Marjolin ulcer. Dermatol Online J 2013;15;19(2):7.

10. Agir H, Adams BM, Mackinnon CA. Squamous cell carcinoma of the palm: a case report. Acta Orthop Traumatol Turc 2007; 41(4):321-5.

11. Sever C, Kulaç Y, Öksüz S. Subungual Squamous Cell Carcinoma Masquerading as an Onychomycosis. J Clin Anal Med 2012;3(2): 231-3.

How to cite this article:

Özkoç HU, Çalka Ö, Dere G, Bayram İ. Tandoor Heat Related Symmetric Squamous Cell Carcinoma: Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 497-9.



An Unusual Situation Causing Voiding Dysfunction: Inguinal Herniation of the Bladder

İşeme Bozukluğuna Sebep Olan Nadir Bir Durum: Mesanenin İnguinal Kanala Herniasyonu

İnguinal Kanala Mesane Herniasyonu / Inguinal Herniation of the Bladder

Sadi Turkan¹, Yeşim Üçkurt², Mehmet Kalkan³, Coşkun Şahin³

¹Kastamonu Anadolu Hospital, Urology, Kastamonu,

²Fatih University, School of Medicine, Department of Radiology, Istanbul,

³Fatih University, School of Medicine, Department of Urology, Istanbul, Turkey,

Özet

İnguinal herni onarımı en sık yapılan cerrahi yöntemlerden biridir. Herni onarımı sırasında herni kesesi içerisinde sıklıkla bulunan organ ince barsak anslarıdır. Nadir olarak lipom, overler, appendix bulunabilir. Biz mesane dolum ve boşaltım bozukluğu semptomlarına sebep olan mesanenin inguinal kanala herniasyonu olgusunu sunduk.

Anahtar Kelimeler

Mesane Herniasyonu; İnguinal Herni; İnguinal Kitle

Abstract

Inguinal hernia repair is one of the most commonly performed surgical procedures. Intestinal loops are often found in hernia sac during hernia repair. In rare cases, lipoma, ovaries, appendix can be found. We presented that inguinal herniation of the bladder cause filling and emptying disorders symptoms.

Keywords

Bladder Herniation; Inguinal Hernia; Inguinal Mass

DOI: 10.4328/JCAM.2610

Received: 05.06.2014 Accepted: 27.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 500-2

Corresponding Author: Mehmet Kalkan, Fatih Üniversitesi, Tıp Fakültesi Hastanesi, Sahil Yolu Sok. No: 16, 34844 Dragos, Maltepe, İstanbul, Turkey.

GSM: +905322650917 F.: +90 2163528359 E-Mail: mkalkan@fatih.edu.tr

Giriş

Mesanenin inguinal kanala fıtıklaşması nadir görülen bir anomalidir. Tüm inguinal hernilerin % 5'inden azını teşkil eder. Nadiren femoral kanala, abdominal duvara, perineye, obturator kanala da fıtıklaşma görülebilir [1]. Yaşlı hastalarda işeme disfonksiyonu şeklinde başvurular olabilir.

Biz mesane dolum ve boşaltım bozukluğu semptomlarına sebep olan mesanenin inguinal kanala herniasyonu olgusunu sunduk. OLGU SUNUMU: 74 yaşında erkek, sık idrara çıkma, az ve tazyikli düşük idrar yapma, kesik kesik işeme, tam boşaltamama hissi ile başvurdu. Yaklaşık 3 aydır tamsulosin kullanan hasta ilaçtan hiç fayda görmediğini ifade etti. Fizik muayenede ekstrapenital organlar normal olarak değerlendirildi. Transrektal muayenede Prostatın yaklaşık 30 cc hacimde ve yumuşak kıvamda tespit edildi. Ayakta ve valsava ile belirginleşen sağ inguinal kanalda herni ile uyumlu şişlik, supin pozisyonda rahatlıkla redükte edilebiliyordu. PSA 1.9 ng/dl, idrar analizi ve kültürü normaldi. Üroflowmetride Qmax 18 ml/sn, Qave 8 ml/sn işeme volumü 189 ml idi. Ultrasonografi de mesanede 200 ml postmiksiyonel rezidüel idrar olduğu ve mesanenin inguinal kanala yöneldiği rapor edildi. Pelvik manyetik rezonans görüntülemeye mesanenin sağ inguinal kanala hernie olduğu tespit edildi (Figure 1 ve 2). Üretrosistoskopi de üretranın normal, prostatik üretra bölümünün açık, mesanede her iki üreter orifisinin normal olduğu divertikül olmadığı, mesane kapasitesinin 450 ml olduğu görüldü. Hastaya sağ inguinal insizyon yapıldığında mesanenin, direk herni şeklinde retroperitoneal olarak kanal arka duvarı yoluyla kanal içerisine girdiği, fıtık kesesinde barsak anslarının olmadığı görüldü (Figure 3). Mesane, açılmaksızın retroperitoneal alana rahatlıkla redükte edilebildi. Kanal arka duvarına takviye sütürasyon ve prolen mesh ile destekleme tarzında herni onarımı yapıldı. Herni onarımı sonrası 3. ay kontrolünde işeme sıklığının normal olduğu, zorlu idrar yapma hissinin azaldığını ifade eden hastaya yapılan üroflowmetride Qmax 19, Qave 9 işeme volumü 255 ml, postmiksiyonel rezidüel idrar 70 ml bulundu.



Figure 1. Mesanenin inguinal kanala herniasyonunun MR görüntüsü



Figure 2. Mesanenin inguinal kanala herniasyonunun MR görüntüsü

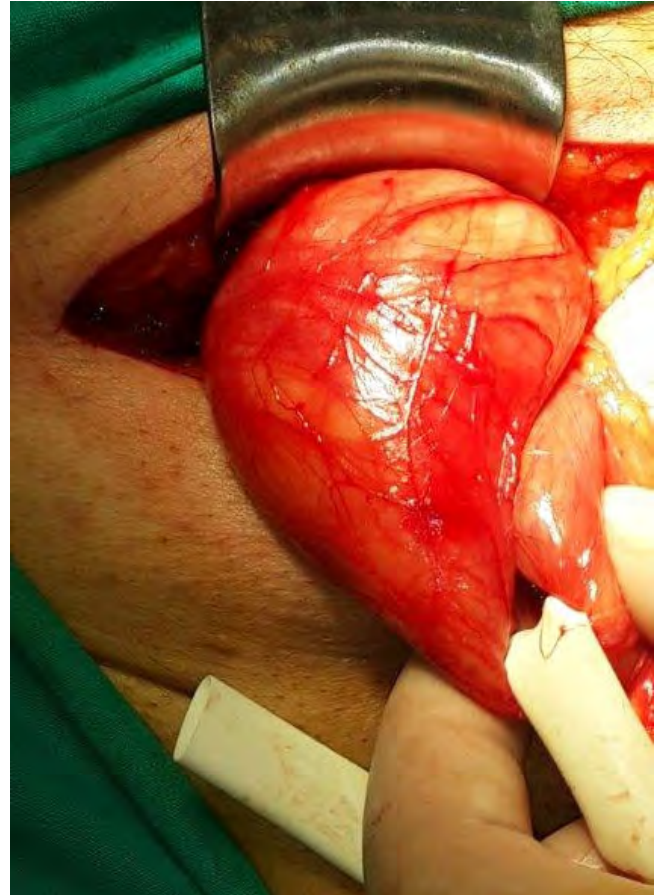


Figure 3. Mesane hernisinin operasyon esnası görüntüsü.

Tartışma

Mesanenin fıtıklaşması; intraperitoneal, ekstraperitoneal ve pa-

raperitoneal olabilir. En sık karşılaşılanı ekstraperitoneal inguinal olan tipidir [1, 2]. Hafif olanları genellikle semptom vermez. Belirgin olanları ilgili kasıkta şişlik şeklinde karşımıza çıkar. İşeme sonrası şişlikte azalma, ikili işeme dediğimiz belirli aralıklarla işeme, karın ve şişlik bölgesine bastırmakla işemenin takviye edilmesi gibi spesifik ve nonspesifik yakınmalara neden olabilir [2]. Alt üriner sistem obstrüksiyonları ile karşımıza çıkabileceği gibi sepsis, böbrek yetmezliği, hidronefroz, herni olan mesanede nekroz gibi daha komplike klinik tablo ile de karşımıza çıkabilir. Olgumuzda ilk sorgulamada alt üriner sistem bulguları ön planda idi. İşeme semptomlarına sebep olan mesanedeki anatomik ve fizyolojik yer değişiminin alfa adrenerjik blokör tedavisine olumlu cevabı da engellediğini düşünüyoruz. Fizik muayenede sağ kasıkta ele gelen klasik inguinal herni görünümü de obstrüksiyonu destekliyor olmasına rağmen yapılan ultrasonografide mesanedeki inguinal kanala uzanım uyarıcı oldu. Pelvik MRI sağ tarafta mesanenin inguinal kanal içerisine fıtıklaştığı, bu uzanımın bir divertikül olmadığı net olarak görüldü. Peroperatif mesanenin retroperitoneal olarak kanal arka duvarı yoluyla kanala girdiği, fıtık kesesinde barsak anslarının olmadığı görüldü. Mesane rahatlıkla redükte edilebildi.

Gomella ve arkadaşlarına göre inguinoscrotal herniye bağlı geniş inguinal cerrahide %38'lere varan komplikasyon oranı vardır [3]. Bunlar kanama, sepsis ve fistül oluşumudur. Operasyon öncesi tanının kesinleştirilmesi bu komplikasyon oranlarını düşürecektir. Fizik muayene ve anamnez büyük ölçüde tanıda yardımcı olsa da görüntüleme yöntemleri çoğu olguda gerekir. Ultrasonografi ilk başvurulacak yöntemdir. Ancak yeterli bilgi vermeyebilir. MRI, dolu mesanede üç boyutlu olarak mesanenin konfigürasyonunu yansıtabildiğinden ayırıcı tanıda oldukça yeterli bilgileri sunar [4, 5, 6]. Literatürde, ilginç olarak koroner arter hastalığı sebebiyle koroner anjiyografi uygulanan hastanın inguinal kanalına doğru olan şişliğinin floroskopi altında opak madde dolusu ile tespit edilmiş mesane herni olgusu da sunulmuş [7]. Mesanenin inguinal kanala herniasyonu durumunda en sık başvurulacak cerrahi yöntem, inguinal eksplorasyon, mesanenin anatomik pozisyonuna iadesi, fıtık onarımıdır. Nadiren divertikül ile birlikte olan olgularda divertikülektomi yapılabilir. İşlem intraperitoneal veya preperitoneal yolla laparoskopik olarak da gerçekleştirilebilir [8]. Nitekim Khan ve arkadaşları kendi olgularında laparoskopik yaklaşımı tercih etmişler [2].

Sonuç

Mesanenin inguinal kanala herniasyonu nadir görülen bir durumdur. Dikkatli bir anamnez, fizik muayene, özellikle de işeme bozukluğu semptomları olan fıtıklı hastaların ürolojik değerlendirmelerinin de yapılması, şüphe duyulması durumunda görüntüleme yöntemlerine başvurulması ve cerrahi tedavi öncesi veya esnasında gerekirse üretrosistoskopik incelemenin yapılarak operasyon öncesi kesin tanı konulması, muhtemel operatif komplikasyonların önlenmesine katkı sağlayacağı düşüncesindeyiz.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Bisharat M, O'Donnell ME, Thompson T, MacKenzie N, Kirkpatrick D, Spence

2. Khan A, Beckley I, Dobbins B, Rogawski KM. Laparoscopic repair of massive inguinal hernia containing the urinary bladder. Urol Ann 2014;6(2):159-62.
3. Gomella LG, Spies SM, Burton JM, Ram MD, Flanigan RC. The surgical implications of herniation of the urinary bladder. Arch Surg 1985;120(8):964-7.
4. Pasquale MD, Shabahang M, Evans SR. Obstructive uropathy secondary to massive inguinoscrotal bladder herniation. J Urol 1993;150(6):1906-8.
5. Izes BA, Larsen CR, Izes JK, Malone MJ. Computerized tomographic appearance of hernias of the bladder. J Urol 1993;149(5):1002-5.
6. Bernaerts A, de Beeck BO, Hoekx L, Parizel PM. Paraperitoneal indirect inguinal bladder hernia: MR demonstration. Abdom Imaging 2005;30(6):685-8.
7. Hoşcan MB, Eldem HO, Hoşcan Y, Karabulut Z. An Unusual Incidental Finding of a Coronary Angiography: Bladder Herniation. J Clin Anal Med 2013;4(2):170
8. Charuzi I, Mogutin B, Alis M, Kyzer S. Laparoscopic repair of inguinoscrotal hernia with complete herniation of the urinary bladder. Hernia 2000;4:167-9.

How to cite this article:

Turkan S, Üçkurt Y, Kalkan M, Şahin C. An Unusual Situation Causing Voiding Dysfunction: Inguinal Herniation of the Bladder. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 500-2.



Diagnosis and Management of True Thymic Hyperplasia; Description with Cases in Two Sisters

Gerçek Timik Hiperplazinin Tanı ve Yönetimi; İki Kız Kardeşteki Olgularla Tanımlama

True Thymic Hyperplasia / Gerçek Timik Hiperplazi

Koray Aydoğdu¹, Göktürk Fındık¹, Funda İncekara¹, Furkan Şahin¹, Funda Demirağ², Sadi Kaya¹
¹Department of Thoracic Surgery, ²Department of Pathology,
Atatürk Chest Disease and Chest Surgery Training and Education Hospital, Ankara, Turkey

Özet

Timik hiperplazi anterior mediastene lokalize olan timusun son derece nadir bir neoplazmıdır. Genellikle farklı hastalıklara sekonder olarak gelişmektedir. Bazıları idiyopatik olarak gelişir. Bugüne kadar 50' den fazla olgu bildirilmiş olup bunların çoğunluğu 1 ve 17 yaş arası çocuklardan oluşmaktadır. Bazı olgular ise yetişkinlerde bildirilmiştir. Ama bugüne kadar aynı erkek kardeş veya kız kardeşte bildirilen hiçbir vaka yoktur. Bu nedenle biz burada timik hiperplazinin kalıtsal olup olmayacağı konusuna işaret etmek istedik.

Anahtar Kelimeler

Timus; Mediastinal Tümörler; Genetik

Abstract

Thymic Hyperplasia is an extremely rare neoplasm of thymus which is localized in the anterior mediastinum. Generally it occurs secondary to the different diseases. Some of them occurs idiopathically. Until today there are more than 50 cases reported and most of them are children between the ages of 1 and 17. A few cases are adults. But until today there is no reported case with the same brothers and sisters. Therefore we want to point on whether thymic hyperplasia can be hereditary or not.

Keywords

Thymus; Mediastinal Neoplasms; Genetics

DOI: 10.4328/JCAM.2392

Received: 07.03.2014 Accepted: 30.06.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 503-5

Corresponding Author: Koray Aydoğdu, Atatürk Chest Disease and Chest Surgery, Training and Education Hospital, Department of Thoracic Surgery, Ankara, Turkey.
T.: +90 3125677247 F.: +90 312355135 E-Mail: dr.k.aydogdu@hotmail.com

Introduction

Thymic hyperplasia is an extremely rare neoplasm which is localized in the anterior mediastinum [1,2]. Etiology and prognosis of thymic hyperplasia is not well defined. Fewer than 50 cases have been reported until today. Most of the patients are infants and children between the ages of 1 and 17 [2-5]. True thymic hyperplasia is rarely observed in adults. It occurs twice as often in boys than girls [6,7]. In our report our patients are two sisters and both of them submitted with the same symptoms such as cough, respiratory distress, shortness of breath and often pulmonery infections. And both of their computed tomography (CT) findings were huge masses that were filling the mediastinum in large areas. After a surgery for total excision of masses, the histopathological examinations were adjusted with idiophthich true massive thymic hyperplasia.

Case Presentation

Case 1

A 4 years old girl had submitted to a pediatrics clinic with the complaints of cough, respiratory distress, shortness of breath and 39 degree persistant fever. All the laborotory examinations were normal except lymphcytosis in the blood analysis. According to the posteroanterior chest X-ray of her first submit, nearly whole of the left lung was consolidated, so she was diagnosed with pnomonias (Figure 1:A). Medical treatment had started but despite treatment clinical and radiological improvement had not provided. Despite all the researches her disease could not be diagnosed and due to increasing respiratory distress she was referred to our thoracic surgery clinic for the purpose of both diagnosis and treatment.

In the physical examination in our clinic, left lung sound was charecterized with rhoncus and rales. So we planned a thorax CT for diagnosis. CT showed a huge mass was filling the anterior mediastinum and huge part of left hemithorax in a solid form (Figure 1:B). For a further analysis abdominal ultrasonography (USG) and cranial CT were seen and both of them were normal. Fine needle aspiration biopsy was suggested for diagnosis but her parents were not agreed because patients respiratory distress had increased and would lose time waiting for pathology results. Surgery was performed for both diagnosis and treatment as advised, especially to relief the mediastinal compression. Left posterolateral thoracotomy was preferred because the mass was generally in the left side. The approach to the mass for total excision with left thorocotomy was easier than median sternotomy. During the operation, we saw that the mass had filled nearly whole of left hemithorax and adhered to the arround tissues, and the left lung was consolidated because of compression. The mass was in the dimension of 16x14x9cm. Mediastinal mass composed entirely normal thymic tissue. The mass was excised totally.

The histopathological examinations showed that the mass contained well developed cortical areas, thymic medulla and Hassal's corpuscles. Thymic cortex was divided in to the lobules by septas. The septa extended to the corticomedullary junction (Figure 2:A). Hassal's corpuscles expressed high molecular weight cytokeratin cortex contained CD1 a positive T cells. CD 20 positive B cell component was largely confinded to the thymic medulla (Figure 2:B). B cells were surrounded with Hassals

corpuscles.

There was no problem on her postoperative control posteroanterior chest X-ray (Figure 1:C)



Figure 1. Preoperative posteroanterior chest X-ray showed nearly whole of the left lung was consolidated(A). Preoperative thorax CT scan showed a huge mass that filling the anterior mediastinum and a great part of left hemithorax in a solid form(B). Postoperative posteroanterior chest X-ray(C).

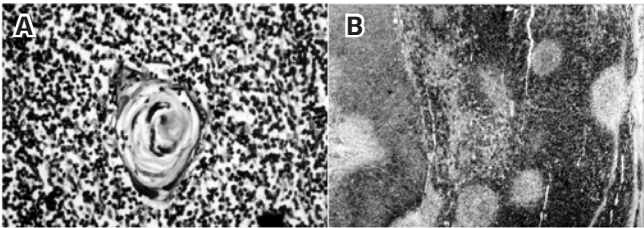


Figure 2. Histopathological studies: Normal thymic tissue which contains well developed cortical areas, thymic medulla and Hassal's corpuscles.Thymic cortex was divided in to the lobules by septas.The septa extends to the corticomedullary junction(A). Hassal's corpuscles expressed high molecular weight cytokeratin cortex contained CD1 a positive T cells. CD 20 positive B cell component was largely confinded to the thymic medulla(B).

Case 2

Our first patient's sister submitted to a different hospital with cough, respiratory distress, 39,5 degree fear and shortness of breath, almost the same complaints with her elder sister when she was 6 months old in 2007. Her posteroanterior chest X-ray showed consolidation on bilateral upper lobes, right lobe and lingula (Figure 3:A). Bilateral lung sound was corelated with rales and rhoncus. First diagnose was pnomonias. So, medical treatment had started but despite treatment clinical and radiological improvement had not provided. So she had referred to our hospital. We thought that all of her complaints could be secondary to a mediastinal mass such as her elder sister. And also we took care whether that mass was hereditary or not. So we immediately planned a thorax CT (Figure 3:B). CT showed a huge mass that was filling the both lung parancymal distances beginning from anterosuperior compartment of mediastinum and surrounding the hearth. Abdominal USG and peripheral blood analysis were normal. We immediately planned surgery, our choise was median sternotomy that time. Because the mass was filling both hemithorax and it was easier to approach to the both side masses. Surgery was performed and the mass

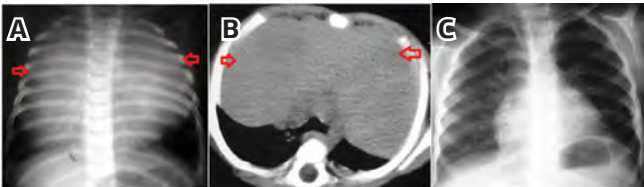


Figure 3. Preoperative posteroanterior chest X-ray showed consoladation on bilateral upper lobes, right lobe and lingula(A). Preoperative CT scan showed a huge mass that is filling the both lung parancymal distances beginning from anterosuperior compartment of mediastinum and surrounding the hearth(B). Postoperative posteroanterior chest X-ray(C).

excised totally. There was no problem on her postoperative control posteroanterior chest X-ray graph (Figure 3:C) The excised mass was in the dimension of 14x7x5 cm and in the weight of 160 grams. Its surface was grey-white colored and lobulated (Figure 4). All the hysthopathological study findings were adjusted with Idiopathic True Massive Thymic Hyperplasia, and all of lymph nodes were reactive. During postoperative controls, there were no complications. All these results directed us to another baby of this family whom is a boy and was born from another mother .We looked for such a mediastinal mass. But he was safe. Our patients were safe in their postoperative controls and all of their preoperative complaints were cured.



Figure 4. The excised mass is in the dimension of 14x7x5 cm and in the weight of 160 grams. Its surface is grey -white colored and lobulated.

Discussion

Thymic hyperplasia is a rare cause of anterior mediastinal mass in children [1-3]. Etiology and prognosis of thymic hyperplasia is not well defined [2-5]. It is separated in two categories such as lymphoid or follicular hyperplasia that characterized with activated germinal centers and lymph follicles. The other is True thymic hyperplasia which has a normal thymic architecture and normal germinal centers and lymph follicles expected for age and occurs in two forms as rebound thymic hyperplasia and idiopathic true massive thymic hyperplasia [6,7]. Rebound hyperplasia occurs after especially graves disease, Cushing Syndrome, burns, after steroid therapy, association with endocrine abnormalities, testicular tumors, sarcoidosis, lymphoma, and Beckwith Wiedeman Syndrome [8]. Idiopathic true thymic hyperplasia has a well defined clinicopathological profile prevalence in children or young patients, absence of associated autoimmune disease and often presence of cough, respiratory distress, shortness of breath, peripheral blood lymphocytosis. All of these patients have normal immun systems. CT generally shows a mass located in anterior mediastinum. There have been cases reported about rebound massive thymic hyperplasia generally secondary to the non hodgkin lymphoma, hodgkin lymphoma and after chemotherapy. And also there are a few reported cases of idiopathic true massive thymic hyperplasia especially in children and young patients. [8]. Treatment is surgical removal

of the thymic mass. Linegar and coworkers suggested median sternotomy, clamshell incision or single-sided posterolateral thoracotomy as surgical approach.

When we examine the literature mentioned with multiple cases, we did not detect familial intimacy or brotherhood in any of them. However, that is strange that our cases are two sisters and they have the same complaints, both of them were operated and both of their histopathological study results were idiopathic true massive thymic hyperplasia form. We want to point on whether it can be hereditary or not.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Linegar AG, Odell JA, Fennell WM, et al. Massive thymic hyperplasia. *Ann Thorac Surg* 1993;55(5):1197-201.
2. Rice HE, Flake AW, Hori T, et al. Massive thymic hyperplasia: characterization of a rare mediastinal mass. *J Pediatr Surg* 1994;29(12):1561-4.
3. Lee Y, Moallem S, Clauss RH. Massive hyperplastic thymus in a 22-month-old infant. *Ann Thorac Surg* 1979;27(4):356-8.
4. Lamesch AJ. Massive thymic hyperplasia in infants. *Z Kinderchir* 1983;38(1):16-8.
5. Lack EE. Thymic hyperplasia with massive enlargement: report of two cases with review of diagnostic criteria. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1981 ;81(5):741-6.
6. Tani T, Okumura F, Nakamura A, et al. Case of thymic hyperplasia showing slow growth as revealed by chest X ray. *Nihon Kyobu Shikkan Gakkai Zasshi* 1994;32(2):194-8.
7. Yoshitake T, Itoyama S, Masunaga A, et al. Focal thymic hyperplasia in an adult: report of a case. *Surg Today* 1994;24(1):72-4.
8. Scharifker D. True Thymic Hyperplasia associated with a unilocular thymic cyst: an unusual combination not previously reported. *Ann of Diagnostic pathology* 2006;10(1):32-5.

How to cite this article:

Aydoğdu K, Fındık G, İncekara F, Şahin F, Demirağ F, Kaya S. Diagnosis and Management of True Thymic Hyperplasia; Description with Cases in Two Sisters. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 503-5.



Bilateral Anterior Rectus Sheath Turnover Flap for Abdominal Closure

Bilateral Ön Rektus Kas Kılıfı Turnover Flep Yöntemi ile Karın Kapama

Yararlı Bir Cerrahi Teknik / A Usefull Surgical Technique

Bulent Kaya
Kanuni Sultan Suleyman Training And Research Hospital, Department of General Surgery, İstanbul, Türkiye

Özet

Doku kaybı ile birlikte olan karın duvarı fıtıklarının tedavisi zor bir konudur. Birçok cerrahi teknik tedavide kullanılmıştır. Bazen karın duvarının primer dikişlerle kapatılması imkansızdır. Dual yamalar, component seperasyon tekniği, müskulofasial flepler karın kapama için kullanılabilir. Bu olgu sunumunda kompleks karın duvarı fıtığı nedeni ile tedavi edilen hasta sunuldu. Karın, ön rektus kası kılıfı turnover flep yöntemi ile başarılı şekilde kapatıldı. Bu tekniği literatür taraması ile birlikte tartıştık.

Anahtar Kelimeler

İnsizyonel Herni; Kompleks Karın Duvarı Fıtıkları; Ön Rektus Kas Kılıfı; Turnover Flep

Abstract

The management of abdominal wall hernias with tissue loss is a difficult subject. Several surgical techniques have been used in the treatment. Sometimes closure of the abdomen with primary sutures may be impossible. Dual meshes, component separation technique, usculofascial flaps can be used for closure of the abdomen. In this case report a patient with complex abdominal wall hernia was presented. The abdomen was successfully closed with anterior rectus sheath turnover flap. We discussed this surgical technique with literature review.

Keywords

Incisional Hernia; Complex Abdominal Wall Hernia; Anterior Rectus Sheath; Turnover Flap

DOI: 10.4328/JCAM.2586

Received: 26.05.2014 Accepted: 03.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 506-8

Corresponding Author: Bulent Kaya, Kanuni Sultan Suleyman Training and Research Hospital, Department of General Surgery Halkali, İstanbul, Turkey.

GSM: +905056822101 E-Mail: drbkaya@yahoo.com

Introduction

Complex anterior abdominal wall defects are both challenging and technically demanding problem for many surgeons. Any abdominal defect that can not be closed primarily without tension accepted as complex abdominal wall defect. They usually occur after trauma, infection and oncological surgery. Different surgical methods have been used to manage these defects. Various muscle and myocutaneous flaps like tensor fascia lata [1], rectus femoris [2], rectus abdominis [3] and latissimus dorsi [4] have been reported in literature for the repair of abdominal wall defects. In this case report, we presented a patient with complex abdominal wall hernia and treated with bilateral anterior rectus sheath turnover flap and prolene mesh repair.

Case Report

A 42 years old male patient presented with abdominal bulging. There was an incisional hernia on upper midline part of the abdomen. The patient had been operated due to umbilical hernia 13 years ago. He had chronic obstructive pulmonary disease. There were incisional hernia which contains omental tissue in abdominal ultrasonography. The patient was decided to operated with the diagnosis of incisional hernia. The upper and lower midline incision about 15 cm in length was performed. The defect in abdominal wall was explored. The hernia sac and omentum was resected. After resection there was a defect about 9x6 cm in diameter. This defect could not be closed with primary sutures. Anterior rectus sheath was incised about 5-6 cm lateral to midline bilaterally (Figure 1, Figure 6A). Rectus sheath was dissected and freed from underlying rectus muscle (Figure 2-3). The hemorhages from muscle was controlled with electrocautery. Free rectus sheath flaps were turned and sutured with 2/0 prolene sutures (Figure 4, Figure 6B-C). The abdomen was totally closed. The subcutaneous tissue was dissected for onlay repair with prolene mesh. Approximately 18x25 cm prolene mesh was lied above rectus muscles and sutured with 2/0 prolene (Figure 5). A hemovac dren was put in to surgical region. Subcutaneous tissue and skin was primarily sutured. There was no problem in postoperative period. The patient was send to the home in 7. postoperative days.



Figure 1. A vertical incision on the anterior rectus sheath



Figure 2. Dissection of anterior rectus sheath



Figure 3. Bilateral anterior rectus sheath turnover flap



Figure 4. Suturing two rectus sheath with 2/0 prolene material

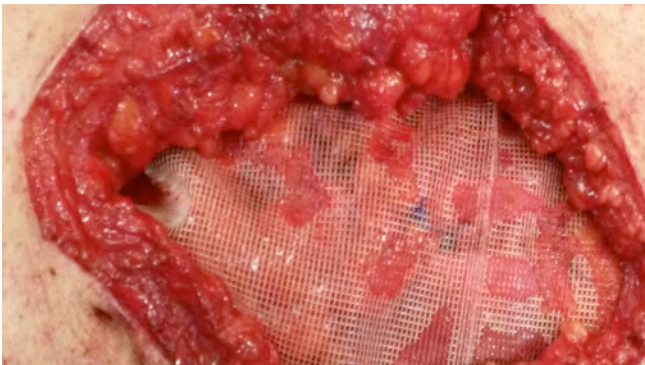


Figure 5. Prolene mesh was lied above rectus sheath

Discussion

The anterior rectus sheath is one of the important structure that support the integrity of the abdominal wall. Repair of large abdominal defects with abdominal muscles or fascial components was first introduced by Farr in 1922 and Wagensteen

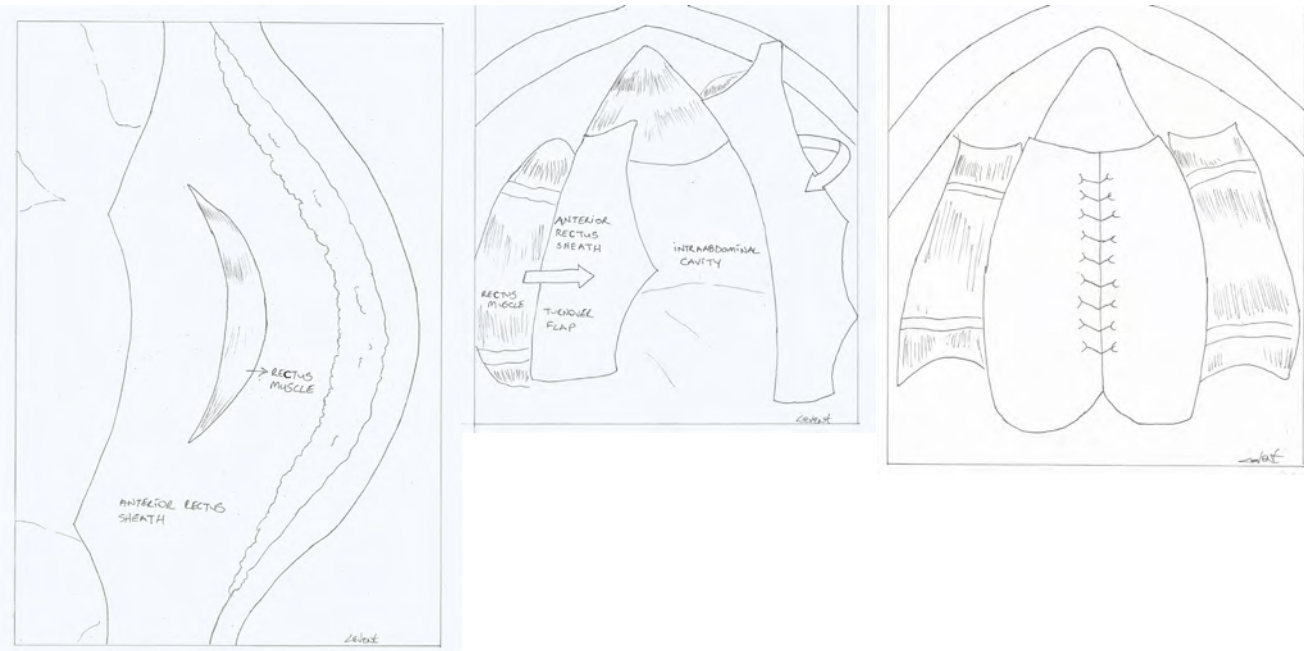


Figure 6. Incision of the anterior rectus sheath(A), Anterior rectus sheath is turned over for abdominal closure(B), Closure of the abdomen with anterior rectus sheath turnover flap(C).

in 1934 and they used entire anterior rectus sheath and part of the external oblique aponeurosis . Today, prolene and dual meshes are main surgical materials that are used in repair of abdominal wall hernias.

The usage of abdominal muscles or fascial structures for abdominal wall defects is not common in literature.Koshimoto S et al used anterior rectus sheath turnover flap for abdominal closure in patients with open abdomen[5] .They performed this technique after 10 to 14 days following first laparotomy and treated a total of 54 patients with this technique. Although there were no enterocutaneous fistula or wound dehiscence they state that about 50% of patients were suffered from abdominal bulging.But none of these patients were operated with incisional hernia.They also emphasise that early closure of abdomen with this technique was also usefull for decreasing enteroatmospheric fistula formation. Being a very similar technique, Bae SK et al were used the rectus myofascial splitting flap for the treatment of chronically infected abdominal wall after gynecological operations[6] .Anterior rectus sheath and underlying rectus muscle were mobilized and advanced medially for closure of the abdomen.The technique was successfully performed in 5 patients. The components separation technique (CST), first described by Ramirez et al [7] . This technique consists of advancement of the abdominal muscles including rectus abdominis,internal oblique and transversus abdominis toward the linea alba, with preservation of the neurovascular structures. Takahasi M was used anterior rectus sheath turnover flap in combination with component separation in patients with liver transplantation [8] .They used this technique in 3 patients during the early postoperative period and in one patient during the late postoperative period successfully.

In this present case, after hernia repair the abdominal wall could not be closed with primary sutures.There was a huge defect in midline.We made a longitudinal incision to anterior rectus sheath. Fascial turnover flap was prepared for closure of abdomen.The abdominal wall was closed without tension with this technique. The potential problems are hematoma forma-

tion and tension in anterior abdomen .Such cases may also be managed with dual meshes.When compare the anterior rectus sheath turnover flap with dual mesh, it is obvious that anterior rectus sheath turnover flap is more cost effective. It is also easy to perform.Our patient was treated with this technique without any complication.So anterior rectus sheath turnover flap can be used successfully in abdominal wall hernias with tissue defects.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Williams JK, Carlson GW, deChalain T, Howell R, Coleman JJ. Role of tensor fasciae latae in abdominal wall reconstruction. *Plast Reconstr Surg* 1998;101(3):713-8.
2. Caulfield WH, Curtsinger L, Powell G, Pederson WC. Donor leg morbidity after pedicled rectus femoris muscle flap transfer for abdominal wall and pelvic reconstruction. *Ann Plast Surg* 1994;32(4):377-82.
3. DeFranzo AJ, Kingman GJ, Sterchi JM, Marks MW, Thorne MT. Rectus turnover flaps for the reconstruction of large midline abdominal wall defects. *Ann Plast Surg* 1996 ;37(1):18-23.
4. Ninković M, Kronberger P, Harpf C, Rumer A, Anderl H. Free innervated latissimus dorsi muscle flap for reconstruction of full-thickness abdominal wall defects. *Plast Reconstr Surg* 1998;101(4):971-8.
5. Koshimoto S, Yamamoto Y, Aiboshi J, Ogawa F, Koido Y, Yoshida R et al. Usefulness of the bilateral anterior rectus abdominis sheath turnover flap method for early fascial closure in patients requiring open abdominal management. *World J Surg* 2007;31(1):2-8.
6. Bae SK, Kang SJ, Kim JW, Kim YH, Sun H. Reconstruction of abdominal wall of a chronically infected postoperative wound with a rectus abdominis myofascial splitting flap. *Arch Plast Surg* 2013;40(1):28-35.
7. Ramirez OM, Ruas E, Dellon AL. "Components separation" method for closure of abdominal wall defects: an anatomic and clinical study. *Plast Reconstr Surg* 1990;86(3):519-26.
8. Takahashi M, Nishida S, Panthaki ZJ, Fan J, Romano A, Tekin A et al. Use of the bilateral anterior rectus fascia turnover method and the components separation method for a difficult abdominal closure after transplantation. *Liver Transpl* 2012;18(9):1121-3.

How to cite this article:

Kaya B. Bilateral Anterior Rectus Sheath Turnover Flap for Abdominal Closure. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 506-8.



Mucopolysaccharidosis VI (Case Report) Brain MRI and MR Spectroscopy Findings

Mukopolisakkaridoz VI (Olgu Sunumu) Beyin MRG ve MR Spektroskopisi Bulguları

Mukopolisakkaridoz VI (Olgu Sunumu) / Mucopolysaccharidosis VI (Case Report)

Fuldem Yildirim Donmez¹, Hulya Aslan²

¹Baskent University Faculty of Medicine, Department of Radiology, Ankara,

²Silopi State Hospital, Department of Radiology, Sirmak, Turkey

Özet

Mukopolisakkaridoz VI veya Maroteaux-Lamy sendromlu çoklu sistem tutulumu olan, arilsülfataz B (ARSB) genindeki mutasyonlar ile tespit edilen otozomal resesif lizozomal depo hastalığıdır. Bu olgu sunumunda takip beyin manyetik rezonans görüntülemesinde (MRG) periventriküler lezyonlarda progresyon ve manyetik rezonans (MR) spektroskopide hafif miyoinozitol yüksekliği dışında belirgin patolojik pik göstermeyen tip 6 Mukopolisakkaridozlu olgunun radyolojik görüntüleri sunulmuştur. MR spektroskopisi ile birlikte klinik bulgular ayırıcı tanıda bazı hastalıkları dışlamaya yardımcı oldu.

Anahtar Kelimeler

Mukopolisakkaridoz Tip 6; Makrosefali; Manyetik Rezonans Görüntüleme; Manyetik Rezonans Spektroskopisi

Abstract

Mucopolysaccharidosis VI or Maroteaux-Lamy syndrome is an autosomal recessive lysosomal storage disorder with multisystem involvement which is determined by mutations in the arylsulfatase B (ARSB) gene. Herein, we report the radiological findings of a case of Mucopolysaccharidosis VI which showed progression of periventricular lesions on follow-up magnetic resonance imaging (MRI) and slight elevation of myoinositol and no other significant pathological peak on magnetic resonance (MR) spectroscopy. MR spectroscopy as well as the clinical findings helped us to exclude some of the diseases in the differential diagnosis.

Keywords

Mucopolysaccharidosis VI; Macrocephaly; Magnetic Resonance Imaging; Magnetic Resonance Spectroscopy

DOI: 10.4328/JCAM.2632

Received: 20.06.2014 Accepted: 03.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 509-11

Corresponding Author: Fuldem Yildirim Donmez, 44. Sokak No:11/8 Bahcelievler, Ankara, Turkey.

T.: +90 3122235417 F.: +90 3122237333 E-Mail: fuldemyildirim@yahoo.com

Introduction

Mucopolysaccharidosis VI (MPS-VI) or Maroteaux-Lamy syndrome is an autosomal recessive lysosomal storage disorder with multisystem involvement which is determined by mutations in the arylsulfatase B (ARSB) gene [1]. MPS-VI is a treatable disease with enzyme replacement therapy and the prognosis is variable depending on the age of onset, disease progression and early diagnosis, which makes the imaging important [2]. Central nervous system abnormalities have been previously reported however; MRI findings are not very well recognized. We wish to report the brain magnetic resonance imaging (MRI) and MR spectroscopy findings of a case of MPS- VI.

Case Report

A 15- month-old female patient initially presented to a state hospital with the complaint of not being able to walk without help. According to the history given by the parents and the birth reports, she did not have asphyxia and her height and weight were normal at birth. Walking with help at 12 months was learned in her history and she never walked alone. She was born to consanguineous parents. On physical examination she had mild phenotypic changes like frontal bossing, short philtrum, bilateral epicanthus, low-set ears, sacral dimple and macrocephaly.

Due to the phenotypic changes and history of consanguineous marriage, genetic and metabolic diseases were suspected. The laboratory findings including urine and blood amino acids, serum creatine kinase, tandem mass spectrometry and activity of biotinidase enzyme, glucose, electrolytes, urea, lactate dehydrogenase and cholesterol levels were normal. Chromosome analysis showed no abnormality. MRI revealed a few hyperintensities on FLAIR and T2-weighted images in periventricular white matter. There wasn't any obstructive mass or hydrocephalus.

At 4 years of age, the patient was admitted to our hospital with poorly progression of mental and motor status. She didn't take any medication at the time. Brain MRI with routine sequences and MR spectroscopy were performed. On routine sequences there were multiple small foci of cystic lesions, most probably dilated perivascular spaces with accumulated glycosaminoglycan which were not present on the previous MRI (Figure 1). These lesions did not show any contrast enhancement. (On MR spectroscopy, minimal elevation of myoinositol peak was detected at TE: 30 ms. N- acetylaspatic acid, lactate and choline levels were normal (Figure 2). Radiological differential diagnosis included mucopolysaccharidosis or Löwe Syndrome, however, the patient lacked ocular or renal abnormalities to favour Löwe Syndrome. Ultrasound of the abdomen excluded possible solid organ abnormalities.

Macrocephaly, clinical phenotype, progressive nature of the disease and history of first degree consanguineous marriage made the diagnosis of mucopolysaccharidosis more likely. After detecting decreased activity of arylsulfatase B enzyme, MPS type VI was confirmed by mutational analysis of the ARSB gene.

Discussion

Central nervous system findings in MP may include cervical cord compression caused by cervical spinal instability, meningeal thickening and/or bony stenosis, communicating hydrocephalus,

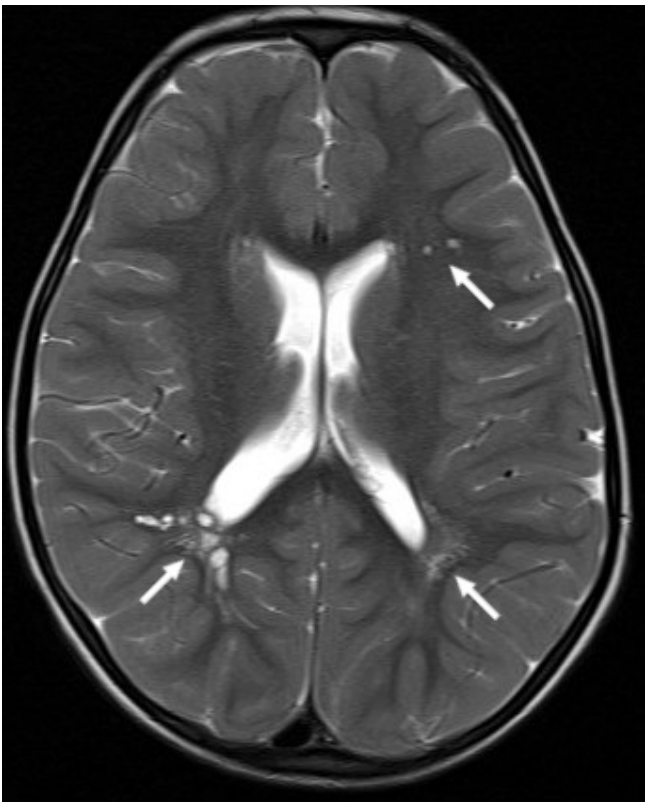


Fig.1. Axial T2-weighted image shows enlarged perivascular spaces in the periventricular region (arrows).

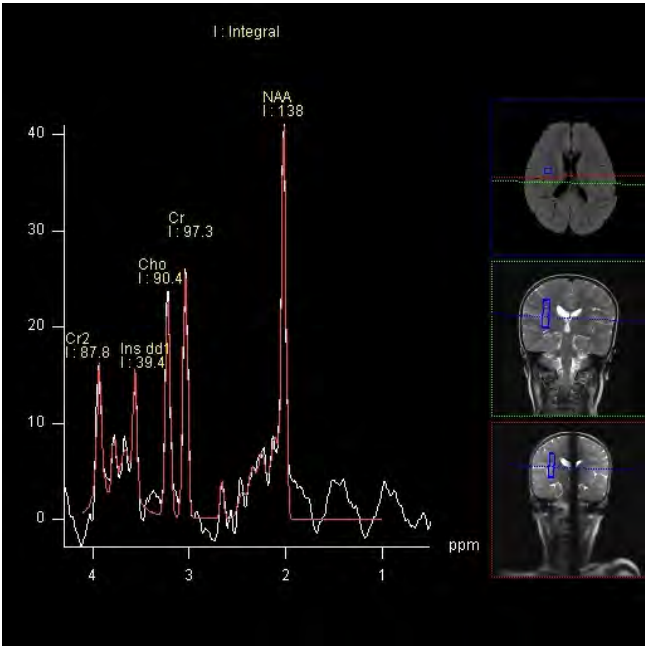


Fig.2. Multivoxel MR Spectroscopy at TE=30 msec shows that the choline, creatine and N-acetylaspatic acid levels are normal in a voxel at the level of right basal ganglia. There is slight elevation of myoinositol.

lus, optic nerve atrophy and blindness [2]. Azevedo et al reported abnormalities in approximately % 90.5 of the patients. Progressive white matter changes and the dilatation of the perivascular spaces were the most frequent abnormalities. Other findings included hydrocephalus, cerebral atrophy and mega cisterna magna [3]. There was also rapid progression of the cystic lesions presumed to be perivascular spaces in the periventricular white matter in our case. Calleja Gero et al and Seto et al showed some abnormalities in brain parenchyma had increased frequency in different types

of MPS, however these were not specific to those types and no correlation was found with clinical severity [4, 5]. However, the clinical findings of our case were progressive as are the MRI findings.

We found elevated level of myoinositol in the white matter which is an astrocyte marker. Therefore, increased levels of myoinositol show astrocytic proliferation which is a nonspecific reaction of the brain to different kinds of central nervous system injuries. The levels of the choline were normal indicating no turnover of the membranes. Lactate peak was not found either, that could be a clue to any mitochondrial disease. Vedolin et al. proposed that increased volume of the cells may be responsible of increased myoinositol and also cerebral glycosaminoglycan deposition is related to induction of the changes in glial cells which can be measured as increase in myoinositol, which is also seen in our case as dilated perivascular spaces presumably of glycosaminoglycan storage and myoinositol increase on MR spectroscopy [6].

Based on the MR spectroscopy findings, mitochondrial diseases which were clinically suspicious could be excluded. Radiologically with the enlarged perivascular spaces and increased myoinositol level, Löwe Syndrome was also in the differential diagnosis and we could not be able to exclude unless we knew the clinical findings were not compatible with this syndrome.

In conclusion, in the presence of typical clinical findings and progressive white matter changes, enlarged perivascular spaces and increased myoinositol levels, MPS VI should be considered in the differential and may guide the clinician to the final diagnosis.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Litjens T, Baker EG, Beckmann KR et al. Chromosomal localization of ARSB, the gene for human N-acetylgalactosamine-4-sulphatase. *Hum Genet* 1989;82(1):67-8.
2. Valayannopoulos V, Nicely H, Harmatz P, Turbeville S. Mucopolysaccharidosis VI. *Orphanet Journal of Rare Diseases* 2010;5:5.
3. Azevedo AC, Artigalás O, Vedolin L et al. Brain magnetic resonance imaging findings in patients with mucopolysaccharidosis VI. *J Inherit Metab Dis* 2013;36(2):357-62.
4. Calleja Gero ML, González Gutiérrez-Solana L, López Marín L et al. Neuroimaging findings in patient series mucopolysaccharidosis. *Neurologia* 2012;27(7):407-13.
5. Seto T, Kono K, Morimoto K et al. Brain magnetic resonance imaging in 23 patients with mucopolysaccharidoses and the effect of bone marrow transplantation. *Ann Neurol* 2001;50(1):79-92.
6. Vedolin L, Schwartz IV, Komlos M et al. Correlation of MR imaging and MR spectroscopy findings with cognitive impairment in mucopolysaccharidosis II. *AJNR Am J Neuroradiol* 2007;28(6):1029-33.

How to cite this article:

Donmez FY, Aslan H. Mucopolysaccharidosis VI (Case Report) Brain MRI and MR Spectroscopy Findings. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 509-11.



Lung Carcinoma Mimicking Hydatid Cyst: A Case Report

Kist Hidatiği Taklit Eden Akciğer Kanseri: Olgu Sunumu

Kist Hidatiği Taklit Eden Akciğer Kanseri: Olgu Sunumu / Lung Carcinoma Mimicking Hydatid Cyst: A Case Report

Nuri Düzgün¹, Hidir Esme¹, Ferdane Melike Duran¹, Ercan Kurtipek²

¹Thoracic Surgery, ²Chest Diseases, Konya Education and Research Hospital, Konya, Turkey

Özet

Akciğer kanserleri, 35 yaş üzeri kadın ve erkeklerde, kanser ölümleri içinde hala birinci sıradadır. %10 oranında kaviteasyon saptanan akciğer kanserlerinde en sık kaviteasyon oluşturan epidermoid karsinomdur. Akciğer kist hidatiği ise Türkiye’de endemik olarak görülmekle birlikte %24 oranında perfore olarak kaviteasyon meydana getirir ve akciğer kanseri ile karışabilir. Bilgisayarlı tomografi (BT), günümüzde toraks patolojilerinin tanısında yaygın olarak kullanılmakta ve konvansiyonel radyografiler ile ortaya çıkarılamayan lezyonlar BT ile saptanabilmektedir. Buna karşın pulmoner hidatik kistler, klinik ve radyolojik bulguları ile teşhis edilebilmesine rağmen, atipik veya karmaşık akciğer lezyonlarında tanı koymak zorlaşmaktadır. Yazımızda göğüs ağrısı ve nefes darlığı şikayeti ile başvuran tomografik incelemelerinde kist hidatikten şüphelenilen, operasyonda gönderilen frozen sonucu malign gelen olgu literatür eşliğinde sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Akciğer Kanseri; Perfore Hidatik Kist; Kaviter Akciğer Lezyonu

Abstract

Lung cancer remains the leading cause of cancer death in women and men, who are older than 35 years of age. Among lung cancers with a 10% cavitation, epidermoid carcinoma is the most common type of cavitating cancer. Although it is endemic in Turkey, pulmonary hydatid cysts also cavitate by perforating 24%, and it can be confused with lung cancer. Computed tomography (CT) is commonly used to diagnose thoracic pathologies, and any lesion which cannot be detected using conventional radiography can be identified by CT. However, although pulmonary hydatid cysts can be diagnosed by clinical and radiological findings, diagnosis of atypical or complicated lung lesions is difficult. We report a case who presented with complaints of chest pain and shortness of breath, with suspected hydatid cyst during tomographic examination, and whose frozen section showed malignancy as accompanied by relevant literature.

Keywords

Lung Cancer; Perforated Hydatid Cyst; Cavitory Lung Lesion

DOI: 10.4328/JCAM.2515

Received: 26.04.2014 Accepted: 08.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 512-4

Corresponding Author: Nuri Düzgün, Konya Education and Research Hospital, Thoracic Surgery, Meram, Konya, Turkey.

GSM: +905074845496 E-Mail: nuri.duzgun@hotmail.com

Introduction

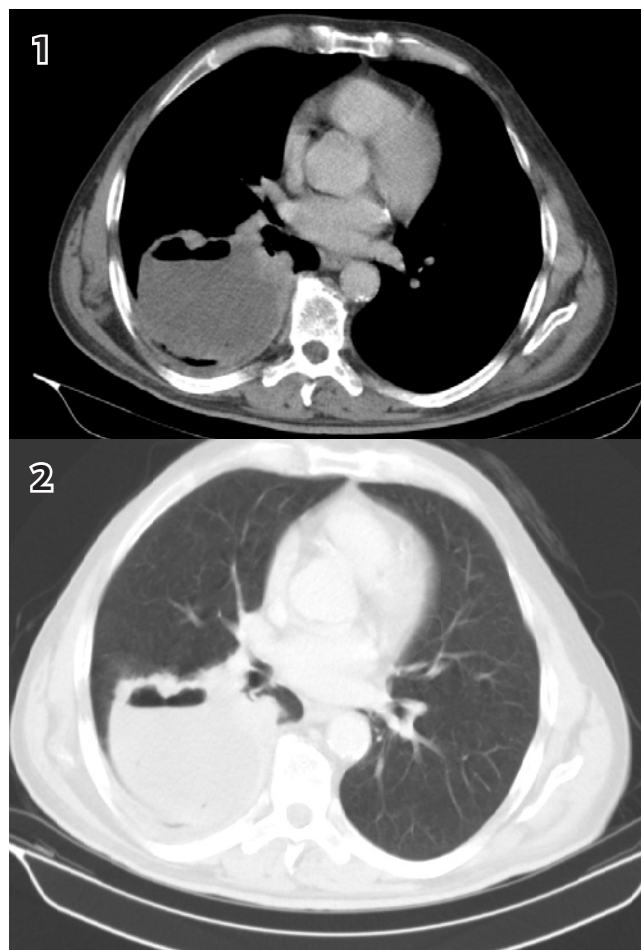
Lung cancer is the most common cause of death associated with cancer [1]. Most of the patients present with symptoms in a late advanced stage. Pulmonary hydatid cyst may not present with systemic symptoms such as fever, malaise, and weight loss during early stage [2]. Other than cavitation associated with necrosis, cavitation may occur secondary to rupture of lesions containing fluid such as hydatid cyst or bronchogenic cyst or presence of a prior infected bulla [3]. CT is the imaging modality of choice for the assessment of suspected or proven lung cancer. Hydatid cyst can be confused with many other pulmonary pathologies, mainly with malignancies [4,5]. We report a case who presented with complaints of chest pain and shortness of breath, with suspected hydatid cyst during tomographic examination, and whose frozen section showed malignancy as accompanied by relevant literature.

Case Report

A 63 year-old male patient admitted to the emergency service with complaints of sudden chest pain, respiratory distress and cough. He informed that he had a dog at home. He described discharge of a lesion looking like a white-membrane (germinative membrane) when coughing within last 15 days. With no additional condition, physical examination of the patient also showed no pathology except for increased reduction in breath sounds. No pathology was observed in whole blood and biochemical tests except for a white blood cell value of 15.000. CT analysis revealed a cystic lesion (perforated hydatid cyst?) of approximately 15 hounsfield units (HU) in density, measuring 10x11 cm in size, with an air-fluid level in the basal segment of the right lower lobe (Pictures 1 and 2). Respiratory function test results were as follows: FEV1 - 2.26 liter, and FVC 2.29 liter. Based on the history and available CT results, patient was treated with thoracotomy based on a preliminary diagnosis of perforated hydatid cyst. Cystotomy was applied on the lesion resembling hydatid cyst associated with the major fissure on both lower and upper lobes. No germinative membrane was noted. A frozen section was obtained from the cavity wall of the 63 year-old patient with a smoking history of 50 pack-years and sent for analysis. The result of the frozen section showed malignancy. The operation was terminated since the patient was unable to tolerate single-lung ventilation during the surgery, and no scan of distant regions was available. The pathological diagnosis was reported as squamous cell carcinoma. The patient was referred to the Medical Oncology Clinic for chemotherapy when postoperative scans of distant regions showed brain metastasis.

Discussion

At present, lung cancer is the most common cause of cancer-related deaths [1]. Diagnosis is usually often delayed since symptoms associated with lung cancer are often non-specific. Especially given the patient's smoking history, cough was attributed to cigarette smoking. Patients with hydatid cysts are mostly asymptomatic. Although the disease progress without any clinical signs, some complaints may occur depending on the involved organ associated with rupture or infection of cyst. Such complaints usually include dyspnea, cough, chest pain and



Picture 1-2. CT images of Case

hemoptysis [4]. Our patient also complained about chest pain and shortness of breath. History of membrane expectorations the most important symptom supporting the diagnosis of a hydatid cyst [2]. He had a history of membrane expectoration. Laboratory analyses are very important in the diagnosis of a hydatid cyst. Although antibody against the parasite can be measured in the body, a negative result will not exclude the disease [5]. We do not request routine indirect hemagglutination test for patients with a suspected hydatid cyst. CT is a common modality in the diagnosis of both lung cancer and hydatid cyst. A common location of hydatid cyst is the lower lobe of the right lung. Similarly, lesion of our patient was also on the lower lobe of right lung. In CT, an intact cyst appears as a rounded, thin-walled, homogeneous radiopacity with regular margins. Radiologically perforated cysts can be demonstrated with evidence of air-fluid level, lotus sign, and meniscus sign [6,7]. We thought that our patient had no lotus sign since he had a history of membrane expectoration. The incidence of cavitation is 10% in lung cancer, and it most commonly occurs in squamous cell carcinoma. The pathology of our patient was reported as squamous cell carcinoma of the lung. The density of lesion 15HU was lower compared to a mass. No spicular extensions were found around the cavitation, which had regular margins. Typically a cavity wall is thick in malignancy. Although tumor cavity can appear regular and thin-walled, it is very rare. In a series of 126 cases with solitary cavities, Woodring and Fried reported that a wall thickness above 4 mm indicates benign tumor, but a wall thickness greater than 16 mm favors malignancy [8]. Our

patient's lesion was consistent with the findings of this study, and the thickest part of the cavity wall was 0.4 mm. The spaced filled with air and/or liquid in lung parenchyma are labeled as cavity and is usually filled with necrotic content. Pneumonia, granuloma, and some lung cancers cause cavities. The structure and thickness of the cavity wall is important. The greater the thickness of the cavity wall, the higher is the malignancy risk. In cavities with a wall thickness above 16 mm, malignancy risk is very high [8]. In cysts with totally expectorated endocyst, a thick pericyst wall develops. In this case separating the cyst from pyogen capture becomes very difficult [7]. Surgery is a treatment modality of choice in both pulmonary hydatid cyst and lung carcinoma.

In conclusion, many conditions, benign or malignant, may lead to cavitary lesions in the lung. What we have learned from this case is that malignancy should always be kept in mind in a patient with cavitary lesion in CT, who has advanced age and a history of smoking even if you live in a country where hydatid cyst is endemic.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Akyar S. Akciğer kanserlerinde ekstratorasik yayılım. *Türk Radyoloji Dergisi* 1997;32(2):269-74.
2. Köktürk O, Gürüz Y, Akay H, Akhan O, Biber Ç, Çağırıcı U ve ark. Toraks Derneği paraziter akciğer hastalıkları tanı ve tedavi rehberi. *Tur Toraks Der* 2002;3(Suppl.1):S1-16.
3. Tetikkurt C. Akciğer hastalıklarında klinik ve radyolojik tanı. *İstanbul: Nobel*; 1997.p.43.
4. Özyurtkan MO, Koçyiğit S, Çakmak M, Özsoy İE, Balcı AE. Case report: secondary pleural hydatidosis. *Türkiye Parazitol Derg* 2009;33(2):177-8.
5. Kuru C, Baysal B. Uniloküler kistik ekinokokkozis'in tanısında indirekt hemaglütinasyon yönteminin değeri. *T Parazitol Derg* 1999;23:251-4.
6. Soner GS, Üçvet A, Türk F, Tözüm H, Erbaycu AE, Başok O. Diagnostic dilemma of hydatid disease: analysis of 16 patients. *Türkiye Klinikleri J Med Sci* 2009;29(2):457-63.
7. Saksouk FA, Fahl MH, Rizk GK. Computed tomography of pulmonary hydatid disease. *J Comput Assist Tomogr* 1986;10(2):226-32.
8. Woodring JH, Fried AM. Significance of wall thickness in solitary cavities of the lung : a follow-up study. *AJR Am J Roentgenol* 1983;140(3):473-4.

How to cite this article:

Düzgün N, Esme H, Duran FM, Kurtipek E. Lung Carcinoma Mimicking Hydatid Cyst: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 512-4.



Intramuscular Hemangioma Mimicking an Adnexal Malignancy

Adneksiyel Maliniteyi Taklit Eden İntamüsküler Hemanjiyom

Nadir Bir Pelvik Kitle / An Uncommon Pelvic Mass

Selen Doğan¹, Tayfun Toptaş¹, İnanç Elif Güler², Tayup Şimşek¹

¹Departments of Obstetrics and Gynecology, Division of Gynecologic Oncologic Surgery, ²Departments of Pathology
Akdeniz University, Faculty of Medicine, Antalya, Turkey

Özet

İntamüsküler hemanjiyomlar, uluslararası vasküler anomaliler sınıflama çalışmasına göre vasküler malformasyonlar olarak tanımlanmaktadır. Radyolojik görüntüleme deki agresif görünüme rağmen agresif olmayan klinik seyir, özellikle bu lezyonlara alışık olmayan klinisyenler için tanıda zorluk yaratmaktadır. Biz burada 49 yaşındaki bir kadın hastada, pelvik taban kaslarından kaynaklanan ve adneksiyel malign bir kitleyi taklit eden mikst tip intramüsküler hemanjiom olgusunu sunmaktayız.

Anahtar Kelimeler

Hemanjiyom; Pelvik Kitle; Pelvik Kaslar; Pelvik Cerrahi; Vasküler Malformasyon

Abstract

Intramuscular hemangiomas were defined as vascular malformations according to the International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA) classification. Aggressive appearance on radiologic images but nonaggressive course of these lesions results in diagnostic challenge for the clinicians that are unfamiliar with these lesions. Here, we present a 49-year-old woman as a rare case of mixed type intramuscular hemangioma originating from pelvic floor muscles, mimicking a malignant adnexal mass.

Keywords

Hemangioma; Pelvic Mass; Pelvic Muscles; Pelvic Surgery; Vascular Malformation

DOI: 10.4328/JCAM.2563

Received: 15.05.2014 Accepted: 05.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 515-7

Corresponding Author: Selen Doğan, Akdeniz University, Faculty of Medicine, Department of Obstetrics and Gynecology, Division of Gynecologic Oncologic Surgery, Antalya, Turkey. T.: +90 2422496000 E-Mail: selendogan@akdeniz.edu.tr

Introduction

Intramuscular hemangiomas (IMH) were defined as vascular malformations according to the International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA) classification [1]. They comprise 0.8% of all hemangiomas [2]. Since it was reported as a first case by Liston at 1843 [3], orthopedicians are familiar with these benign lesions due to their localization predominantly in the upper and lower limb [4]. However, unusual localizations of IMH was reported in the literature, including chest wall, orbicularis oculi muscle, and levator anguli oris muscle [5-7]. Aggressive appearance on radiologic images but nonaggressive course of these lesions is a diagnostic challenge for the clinicians unfamiliar with these lesions, especially when they arise in unexpected locations. Here we present probably the first case report of an IMH originating from pelvic floor muscles, mimicking a malignant adnexal mass.

Case Report

A 49-year-old woman was admitted to our clinic with a diagnosis of pelvic mass detected accidentally on abdominal sonography for the evaluation of dyspeptic complaints. Abdominal and transvaginal ultrasonography showed a 98x74 mm heterogeneous mass with cystic-solid, cavitary appearance with a mixed echo pattern. Color Doppler imaging did not exhibit increased color flow or alterations in vascular resistance parameters on the cavitations (Figure 1a). Vaginal examination revealed stiff dullness on the left vaginal wall and bulging on left upper vagina. Serum tumor markers and hormonal parameters including CA 125, CA 15-3, CA 19-9, CA 72-4, CEA, Alpha-feto protein, estradiol and inhibin were all within normal limits. Pelvic magnetic resonance imaging (MRI) showed a marked hyperintense mass measuring 85x83 mm with lobulated contours, filling the left adnexal region on sagittal T2-weighted images (Figure 1b). Cervical cytology was normal.

The woman had a history of myomectomy 15 years ago and reported no other significant health problem. We preferred laparoscopy for adnexal evaluation. Laparoscopic examination revealed a well circumscribed, mostly solid, sphere-shaped retroperitoneal mass bulging from bottom at left anterior peritoneum. Because of the deep retroperitoneal location of the lesion, we shifted from laparoscopy to laparotomy. A soft, compressible, cystic mass with a fibrous dense capsule growing through vesicovaginal space was detected. The mass was completely removed with adequate margins. Large prominent vascular connections were not observed, and intraoperative bleeding was minimal during dissection. Frozen section analysis was not diagnostic and reported as "nonspecific mesenchymal tumor".

On final pathologic examination, a 7x8x4 cm mass with lobulated surface and solid-cystic, hemorrhagic appearance on cross-sectional analysis was observed macroscopically. Microscopically, hematoxylin and eosin staining showed multiple small and large vascular spaces scattered between the bundles of skeletal muscle. Immunohistochemically, endothelial cells were markedly positive for CD 34 staining (Figure 2). Therefore, the tumor was diagnosed as mixed type intramuscular hemangioma of deep pelvic muscles. Patient is well with normal MRI findings postoperatively, and follow up during 5 months revealed no recurrence.

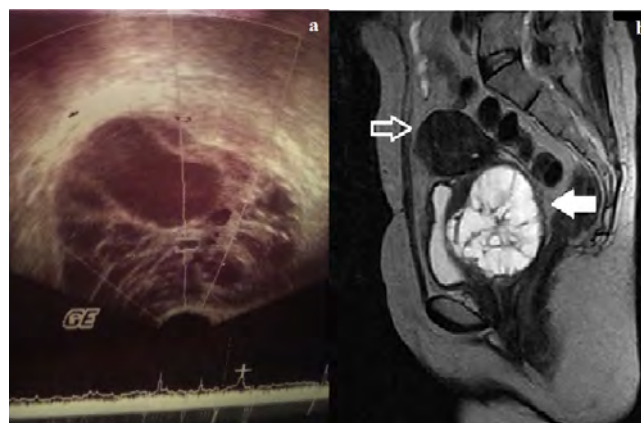


Figure 1. No vascular filling on color Doppler ultrasonography(A). White arrow shows hyperintense mass, blank arrow points uterus pushed upward due to mass effect (MRI sagittal plane, T2 weighted image)(B).

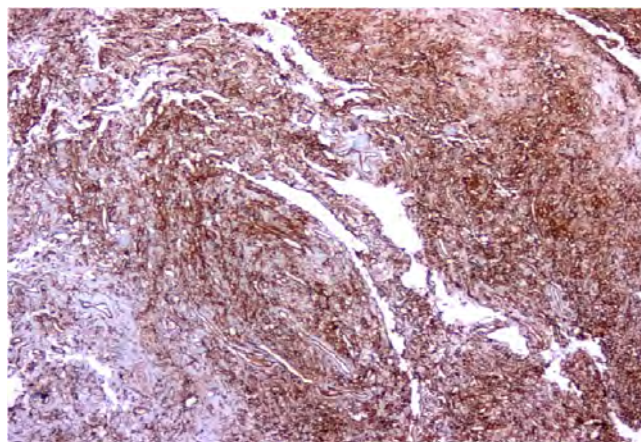


Figure 2. Endothelial cells shows marked positivity for CD34 stain (magnification x50)

Discussion

IMH is a disease of young-adults and is usually diagnosed before age 30 [4]. Pain is the major symptom in reported series [8]; however, it may remain asymptomatic despite its large size as in our case. Thrills and bruits are uncommon. There are several classifications for IMH. While Allen and Elzinger classified their 89 IMH cases according to vessel size as "small vessel", "large vessel" and "mixed" types [8], Beham and Fletcher used a histological classification as capillary, venous, cavernous, lymphatic, and complex lesions. However, they reported that vessel type and size has no influence on symptoms and risk of recurrence [4].

Regarding pathophysiology, it is suggested that nerve fibers and related neuropeptides such as calcitonin gene related peptide (CGRP) have some stimulating role in the development of these lesions [9]. Congenital causes and/or acquired stimulating processes such as trauma and pregnancy are other theories considered responsible for the development of these lesions [5-10].

Calcified bodies on plain radiography (phlebolitis) may aid the diagnosis of IMH located at upper and lower limbs [10]. MRI is a potential diagnostic modality for IMH [11]. A characteristic appearance reflecting vascular and nonvascular components of tumor such as adipose and fibrous tissue facilitates the diagnosis of these lesions. Marked hyperintensity on T2 images secondary to the blood in large vessels and low signal structures

reflecting fibrofatty septa between vessels can be observed on MRI [11-12]. Angiography may expose the vascular structure and its relationships with the neuromuscular bundle; however, MRI is usually proves to be satisfactory.

For treatment, complete excision is important due to the high rate of recurrence in case of incomplete surgery [4-13]. Hemorrhagic complications are not common during surgery [8]. Allen and Elzinger reported 18% recurrence rate; 7% recurred more than once but all of these recurrences were local with no distant metastases observed [8]. Wild reported 11 cases and one recurrence treated with adjuvant interferon alpha in his series [11]. Regarding predictors of recurrence, size of tumors and margin status are the only identified risk factors [13]. Mixed type was reported to have the highest rate for recurrence [8]. If surgical excision will result in functional impairment in adjacent tissue radiotherapy, sclerotherapy, and angiographic embolization are alternative treatment modalities [14-15]. On differential diagnosis, angiosarcomas are the most important lesions to be considered due to altered treatment and prognosis [8].

In conclusion, IMH originating from pelvic muscles was not reported previously to our knowledge. Pelvic location and complex appearance on radiologic images should raise suspicion of gynecologic malignancy.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Enjolras O. Classification and management of the various superficial vascular anomalies: hemangiomas and vascular malformations. *J Dermatol* 1997;24(11):701-10.
2. Watson WL, McCarthy WD. Blood and lymph vessel tumors: a report of 1,056 cases. *Surg Gynecol Obstet* 1940;71(5):569-88.
3. Jones KG. Cavernous hemangioma of striated muscle; a review of the literature and a report of four cases. *J Bone Joint Surg Am* 1953;35(3):717-28.
4. Beham A, Fletcher CD. Intramuscular angioma: a clinicopathological analysis of 74 cases. *Histopathology* 1991;18(1):53-9.
5. Yonehara Y, Nakatsuka T, Ichioka I, Takato T, Matsumoto S, Yamada A. Intramuscular haemangioma of the anterior chest wall. *Br J Plast Surg Case Reports Review* 2000;53(3):257-9.
6. Skoulakis CE, Maistrout D, Drivas EI, Fericean A, Hadjileontis C, Valagiannis DE. Intramuscular haemangioma of the orbicularis oculi muscle of the orbit. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2007;27(5):263-5.
7. Koltzsidopoulos P, Tsea M, Kafki S, Skoulakis C. Intramuscular haemangioma of the levator anguli oris: a rare case. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2013;33(5):350-2.
8. Allen PW, Enzinger FM. Hemangioma of skeletal muscle. An analysis of 89 cases. *Cancer* 1972;29(1):8-22.
9. Robinson D, Segal M, Halperin N, Nevo Z. Neuropeptidergic innervation of intramuscular hemangiomas. *Exp Mol Pathol* 1992;56(3):186-96.
10. Bendeck TE, Lichtenberg F. Cavernous hemangioma of striated muscle: review of the literature and report of two cases. *Ann of Surg* 1957;146(6):1011-5.
11. Wild AT, Raab P, Krauspe R. Hemangioma of skeletal muscle. *Arch Orthop Trauma Surg* 2000;120(3-4):139-43.
12. Buetow PC, Kransdorf MJ, Moser RP, Jr., Jelinek JS, Berrey BH. Radiologic appearance of intramuscular hemangioma with emphasis on MR imaging. *Am J Roentgenol* 1990;154(3):563-7.
13. Bella GP, Manivel JC, Thompson RC, Jr., Clohisy DR, Cheng EY. Intramuscular hemangioma: recurrence risk related to surgical margins. *Clin Orthop Relat Res* 2007;459:186-91.
14. Wisniewski SJ, Newcomer K, Stanson AW. Intramuscular hemangioma of the foot: a diagnostic dilemma. *Med Sci Sports Exerc* 2005;37(10):1655-7.
15. Wierzbicki JM, Henderson JH, Scarborough MT, Bush CH, Reith JD, Clugston JR. Intramuscular Hemangiomas. *Sports Health: A Multidisciplinary Approach* 2012; 20(10):1-7.

How to cite this article:

Doğan S, Toptaş T, Güler İE, Şimşek T. Intramuscular Hemangioma Mimicking an Adnexal Malignancy. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 515-7.



Proximal and Distal Minimally Invasive Plate Osteosynthesis of Four-Piece Tibial Fracture: Case Report

Dört Parçalı Tibia Kırığında Proksimal ve Distal Minimal İnvaziv Tespit: Olgu Sunumu

Minimal İnvaziv Plak Tespiti / Minimal Invasive Plate Osteosynthesis

Murat Gürger, Ömer Cihan Batur, Suat Çelik
Fırat Üniversitesi Hastanesi Ortopedi ve Travmatoloji Anabilim Dalı, Elazığ, Türkiye

Özet

Basit kırıklarda pek çok tedavi seçeneği olmasına rağmen kompleks kırıklarda ve eşlik eden yaralanmaların olması durumunda seçenekler daralmakta ve en uygun yönetime karar vermede zorluklar yaşanmaktadır. Proksimal ve distalden minimal invaziv plaklı osteosentez ile tedavi ettiğimiz dört parçalı tibia kırığı ve akciğer yaralanması olan olgumuzu sunduk.

Anahtar Kelimeler

Osteosentez; Kırık; Minimal İnvaziv Cerrahi İşlemler

Abstract

Although there are many treatment options in complex fractures and following injuries in simple fractures, treatment choices become narrow and there will be difficulties in determining the most appropriate method. We have presented our case which involves a four-piece-tibial fracture and lung injury that we treated with plated osteosynthesis that minimally invasive from proximal and distal.

Keywords

Osteosynthesis; Fracture; Minimally Invasive Surgical Procedures

DOI: 10.4328/JCAM.2587

Received: 11.06.2014 Accepted: 09.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 518-20

Corresponding Author: Murat Gürger, Fırat Üniversitesi Hastanesi Ortopedi ve Travmatoloji Anabilim Dalı, PK: 23100, Elazığ, Türkiye.

GSM: +905333925076 E-Mail: muratgurger@hotmail.com

Giriş

Kırık iyileşmesinde yumuşak dokuların ve kırık bölgesindeki kan dolaşımının uygulanan tedavi ile mümkün olan en az zararı görmesi kırık iyileşmesini hızlandırmakta ve enfeksiyona olan direnci yükseltmektedir. Bu fikir minimal invaziv yöntemle biyolojik fiksasyon tedavisinin gelişmesine neden olmuştur [1]. 40 yaşında araç dışı trafik kazası sonrası 4 parçalı tibia kırığı olan olgumuza proksimal ve distalden minimal invaziv plaklı osteosentez uygulamamızı sunduk.

Olgu Sunumu

Araç dışı trafik kazası sonrası sol tibiasında parçalı kırığı olan 40 yaşındaki erkek hastada aynı zamanda akciğer kontüzyonu ve pnömotoraks mevcuttu. Genel durumunun stabil olmaması nedeni ile hastaya uzun bacak atel yapıldı yoğun bakım ünitesine alındı. İkinci gününde genel durumu stabil olan hasta ortopedi kliniğine alındı yumuşak doku yönünden takip edildi. Yumuşak dokunun, planladığımız cerrahi müdahale için uygun olduğu düşünüülerek beşinci gününde ameliyat edildi.

Hastanın kırığı AO sınıflamasına [2] göre 42-C2 tipi kırıktı. Gustilo ve Anderson sınıflamasına [3] göre tip I, Tscherne sınıflamasına [4] göre C-II tip kırıktı(Resim 1).

Hastanın solunum problemi olması nedeni ile intramedüller çivi tedavisi emboli riskinden dolayı tercih edilmedi. Hastanın tüm tibia boyunca dört parçalı kırığı olduğundan açık cerrahi yüksek enfeksiyon ve kaynamama riskinden tercih edilmedi. Biyolojik bir tespit yöntemi olduğu için minimal invaziv plaklı osteosentez kararı verildi.

Cerrahi Teknik

Cerrahi profilaksi amacıyla sefazolin 1 gr. i.v uygulandı. Skopi altında proksimal kırık redükte edildikten sonra sağ diz altı yaklaşık 5 cm anterolateral insizyonla girildi. Kemiğe ulaşıldıktan sonra 1 adet titanyum proksimal tibia plağı periost üzerinden olarak kaydırılarak distale doğru ilerletildi. Plağın distaline uyan bölgeye yaklaşık 5 cm'lik insizyonla girildi. Kırık hattı açılmadan proksimal ve distalinden vidalarla plak sabitlendi. Tibia distaldeki parçalı kırık için yaklaşık 5 cm'lik distal anteromedial insizyonla girildi. Kemiğe ulaşıldıktan sonra skopi eşliğinde redüksiyon yapıldı ve dizilim sağlandı. 1 adet distal tibia plağı kemik üzerinden periost üzerinden kaydırılarak proksimale doğru ilerletildi. Plağın proksimaline uyan bölgeye yaklaşık 5 cm'lik insizyonla girildi. Kırık hattı açılmadan proksimal ve distal vidalarla plak sabitlendi(Resim 2). Operasyon komplikasyonsuz yaklaşık 2 saate sonlandırıldı. postoperatif üçüncü günde taburcu edildi. Hasta koltuk değneği ile sol alt ekstremiteye yük vermeden mobilize edildi ve erken eklem hareketleri başlandı.

Hastanın dördüncü ayındaki grafilerinde kaynama gecikmesi saptanması üzerine iliak kanatlardan alınan otogreftlerle kırık hattı greflendi. Hastanın birinci yılda kaynaması tamdı. Hastada damar sinir hasarı, enfeksiyon ve kısalık gibi komplikasyonlar görülmedi fakat sagittal planda 7° rekurvatum ve ayak bileğinde 6° valgus deformitesi mevcuttu. Bunula birlikte diz ve ayak bileği hareketleri tam olarak değerlendirildi. Aksaması ve ağrı yakınması yoktu. Operasyondan 19 ay sonra implantları çıkarıldı.



Resim 1. Ameliyat öncesi grafiler



Resim 2. Ameliyat sonrası ve 22. Ay kontrol grafileri

Tartışma

Minimal invaziv yöntemle kırıkların tespiti, klasik plak vida ile osteosentezin cerrahi, biyolojik ve biyomekanik prensiplerinde değişikliklere yol açmıştır. Klasik tespit, kırık hematomunun temizlenerek kırık hattında kompresyon ile kırığın mutlak stabilitesi amaçlanırken, minimal invaziv yöntemle tespit, plağın atel vazifesi görerek dizilimin sağlanması ve kesin bir stabilite yerine rölatif stabilite amaçlanır. Cerrahi teknikte kırık öncelikle indirek olarak redükte edilir ve köprüleme görevi gören uzun bir plak ile kırık hattı köprülenecek şekilde periost üzerinden osteosentez yapılır. Redüksiyonda amaç anatomik redüksiyon de-

ğildir ancak ekstremitenin uzunluğu, rotasyonu ve aksiyel dizilimi sağlanır. Kırık hattında mikro hareket mevcuttur ve kallus gelişimi ile stabilite gelişir [5].

Bizim vakamızda olduğu gibi segmenter kırıklarda ve yumuşak dokunun korunması gereken durumlarda tedavi seçenekleri arasında eksternal fiksatörlere güçlü bir alternatif olarak minimal invaziv yöntemler dikkat çekmektedir. Sirküler eksternal fiksatörler iyi bir tedavi seçeneği gibi görünse de pin dibi enfeksiyonları ve sonucunda osteomyelit ve septik artritis riski her zaman mevcuttur. Ayrıca eşlik edebilecek pin gevşemesi, fiksatörün kırık kaynaması için gerekli sürede devamlılığını engelleyebilmektedir. Kırık konsolidasyonu sonrası çıkartılan fiksatörlerden sonra geç deformite oluşabilir [6].

Dar ve deforme kanal, şiddetli yumuşak doku hasarı, kompartman sendromu, vasküler hasar, medüller kanalın tam kontaminasyonu, proksimal ve distal ekleme uzanan kırıklarda intramedüller çivilerin kullanımı önerilmemektedir [7]. Bizim vakamızda yumuşak dokunun durumunun iyi olmaması, segment sayısının fazla olması nedeniyle dizilimin sağlanmasının güç olması ve hastanın solunum sıkıntısının olması nedeniyle intramedüller çivi tedavi seçeneği olarak düşünülmedi.

Tibia kırıklarında köprü plaklama, platoyu da içeren proksimal kırıklarda, cisim kırıklarında ve distal kırıklarda sıkça kullanılır [8]. Tibia kırıklarında minimal invaziv plaklı osteosentez (MIPO) uygulaması daha çok distal tibia kırıklarında uygulanmış olup, hem proksimalden hem de distalden uygulanmış bir vaka literatürde tanımlanmamıştır. Bizim vakamızda olduğu gibi tüm tibia aksı boyunca uygulanabilecek bir sistem mevcut değildir. Bu yüzden biz vakamızda tibia proksimal ve distal MIPO uygulamalarını birleştirdik.

MIPO kullanılmasıyla ilgili kaynamama, kaynama gecikmesi, yanlış kaynama, implant ile ilgili komplikasyonlar, damar sinir hasarı, enfeksiyon gibi komplikasyonlar düşük oranda da olsa bildirilmiştir [8]. Bizim vakamızda hiçbir majör komplikasyon görülmedi. Fakat hastanın dördüncü ay grafisinde proksimal kırık hattında radyolojik olarak kaynama belirtisi görülmemesi üzerine müdahale edilerek otojen greftleme yapıldı.

Sonuç olarak; Bizim olgumuzda olduğu gibi segmenter kırıklarda proksimal ve distal MIPO uygulamasının, eksternal fiksatöre güçlü bir alternatif oluşturabileceği kanaatindeyiz.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Perren SM, Ganz R. Biological internal fixation of fractures: the balance between biology and mechanics. European Instructional Course Lectures 1997;3:161-3.
2. Müller ME, Nazartian S, Koch J, Schatzker J editors. The comprehensive classification of fractures of the long bones. Berlin: Springer-Verlag; 1990. p. 148-82.
3. Gustilo RB, Anderson JT. Prevention of infection in the treatment of one thousand and twenty-five open fractures of long bones: Retrospective and prospective analyses. J Bone Joint Surg Am 1976;58(4):453-8.
4. Oestern HJ, Tscherne H: Pathophysiology and classification of soft tissue injuries associated with fractures. In: Tscherne H, Gotzen L editors. Fractures with soft tissue injuries. Berlin: Springer-Verlag; 1984. p. 1-9.
5. Muratlı HH, Can M, Biçimoğlu A. Kırık tespitinde güncel yaklaşım: İnternal Atelleme. TOTBİD Dergisi 2003;2(1-2):44-50.
6. Krieg JC. Proximal tibial fractures: Current treatment, results and problems. Injury 2003;34(Suppl 1):S2-10.
7. Gönen E, Ateş Y. Uzun kemik cisim kırıklarının cerrahi tedavisinde minimal invaziv yöntemler. TOTBİD Dergisi 2012;11(1):78-88.
8. Liu YW, Kuang Y, Gu XF, Zheng YX, Li ZQ, Wei XE et al. Close reduction combined

with minimally invasive percutaneous plate osteosynthesis for proximal and distal tibial fractures: a report of 56 patients. Zhongguo Gu Shang 2013;26(3):248-51.

How to cite this article:

Gürger M, Batur ÖC, Çelik S. Proximal and Distal Minimally Invasive Plate Osteosynthesis of Four-Piece Tibial Fracture: Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 518-20.



Giant Mediastinal Cystic Teratoma Involving Pancreatic Tissue and Showing Rapid Development

Hızlı Büyüme Gösteren, Pankreas Dokusu İçeren Dev Mediastinal Kistik Teratom

Pankreas Dokusu İçeren Mediastinal Kistik Teratom / Pancreatic Tissue Including Mediastinal Cystic Teratoma

Şamil Günay¹, Sabahattin Aslan², Tuncer Şenol³, İrfan Eser¹, Özgül Vurupalmaz⁴

¹Harran University, Medical Faculty Department of Thoracic Surgery,

²OSM Özel Hastanesi, Genel Cerrahi, ³OSM Özel Hastanesi, Göğüs Hastalıkları,

⁴OSM Özel Hastanesi, Patoloji, Sanliurfa, Türkiye

Özet

Nefes almakla artan göğüs ağrısı olan, 23 yaşındaki bayan hasta. Çekilen akciğer grafisi ve Bilgisayarlı Tomografisinde Akciğerin orta lob medial kesiminde, kalp ve mediastinal yapılara bası yapan, 152 mm x 97mm, kalın kapsüllü kistik lezyon görüldü. Hastanın 1 yıl önceki akciğer grafisinin normal olduğu, 6 ay önce çekilen akciğer grafisinde sağ mediastinal bölgede şüpheli bir görünüm olduğu tespit edildi. Yapılan operasyonla kalın kapsüllü, 170 mm x 100 mm kistik lezyon total olarak eksize edildi. Makroskopik olarak en büyüğü 10x6x2 cm, en küçüğü 5x3x1 cm ölçülerinde 5adet koyu kahverenkli düzensiz doku parçaları bulunmaktaydı. Kitleden alınan doku örneklerinin incelenmesinde hiyalinize, fibrotik stroma içerisinde lobüller yapılar oluşturmuş asinerler, duktuslar ve adacıkların izlendiği pankreas dokusu gözlemlendi. Biz hızlı büyüme gösteren mediastende nadir rastlanan bu pankreatik kistik teratoma sunmak istedik.

Anahtar Kelimeler

Mediastinal Teratom; Ektopik Pankreas; Mediastinal Kist

Abstract

23 year old female patient having increasing chest pain by breathing. In her lung graphy and computed tomography there observed 152 mm x 97mm thick encapsulated cystic lesion in the middle lobe medial part of lung that makes pressure on heart and mediastinal structures. It was also obtained that the lung graphy that had been taken a year ago was normal and a suspected view in right mediastinal region of lung graphy that had been taken 6 months ago. With the surgical operation 170 mm x 100 mm thick encapsulated cystic lesion was totally excised. There were also 5 dark brownish random tissue parts which was 10x6x2 cm as the biggest and 5x3x1 cm as the smallest in size macroscopically. During examination on tissue samples that were taken out from the bulk, there observed a pancreatic tissue with acinars, ductus and crawlings which creates lobular structures in hyalinizing fibrotic stroma. We want to present this pancreatic cystic teratoma rarely seen in mediasten which shows rapid development.

Keywords

Mediastinal Teratoma; Ectopic Pancreas; Mediastinal Cyst

DOI: 10.4328/JCAM.2593

Received: 28.05.2014 Accepted: 05.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 521-3

Corresponding Author: Şamil Günay, Harran University Medical Faculty Department of Thoracic Surgery, 63100, Sanliurfa, Turkey.

T.: +90 4143183000 F.: +90 4143151181 GSM: +905336472915 E-Mail: samilgunay@yahoo.com

Giriş

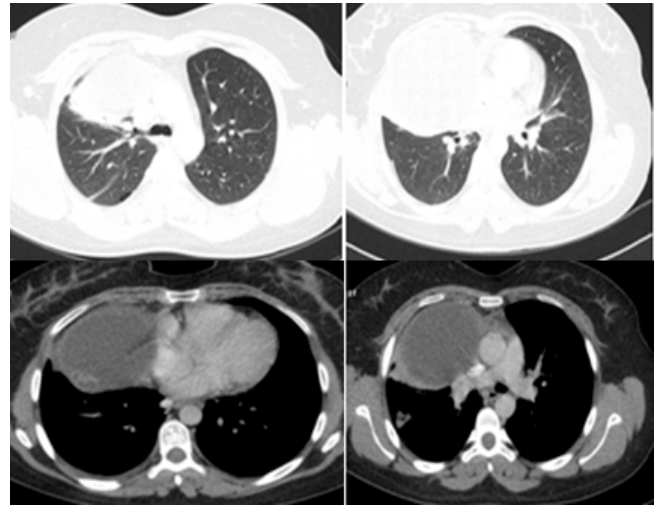
Matür teratomlar primer mediastinal germ hücreli tümörler içinde en sık görülenidir ve mediastinal tümörlerin %10-20 sini oluşturmurlar [1,2]. Mediasten yerleşimli teratomlar her üç germ yaprağını da içeren matür dokulardan gelişir [1]. Mediastenal teratomlarının üç ayrı şekli vardır; epidermoid kist, dermoid kist ve teratomlar. Genellikle ergenlik çağında ve genç erişkinlerde saptanır. Selim teratomlar sıklıkla ön mediastene yerleşmekle birlikte, akciğer parankimi içinde ya da paravertebral alanda da yerleşebilirler [1,3]. Benign mediastenal teratomların rezeksiyonu kür sağladığı için radyoterapi ve kemoterapinin tedavide rolü yoktur. Gonadal teratom ile birlikteliği olmayan mediastenal teratomlarda, nadiren pankreas dokusuna rastlanabilmektedir [1]. Biz, hızlı büyüyen, nadir rastlanan pankreas dokusu içeren mediastenal kistik teratomlu hastayı sunmak istedik.

Olgu Sunumu

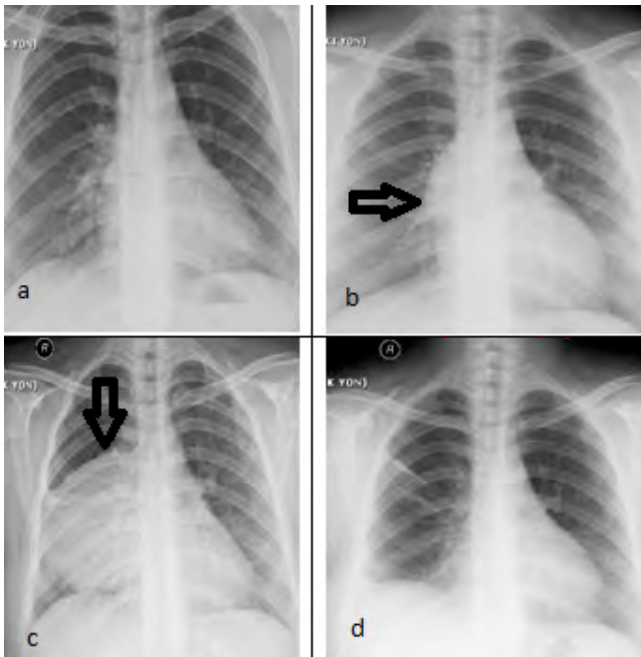
22 yaşında bayan hasta; sağ göğüste yaygın, batar tarzda, nefes almakla ilişkili olmayan ağrı ile başvurdu. Yapılan muayenede sağ üst zonda, anteriorda solunum seslerinin azaldığı tespit edildi. Çekilen akciğer grafisi incelendiğinde hastanın sağ hemitoraksında, kalp ile göğüs duvarı arasında komşuluk gösteren, düzgün sınırlı, yaklaşık 150 mm x 100 mm boyutlarında opak görünüm tespit edildi (Resim 1c). Güneydoğu Anadolu bölgesinde görev yapmamız itibarı ile kist hidatik ön tanısı düşünülerek gerekli radyolojik ve biyokimyasal tetkikler istendi. Çekilen toraks tomografisinde Akciğerde orta lob medial kesimde, kalp ve mediastinal yapılara bası yapan aksiyal boyutları yaklaşık 152 mm x 97 mm ölçülen çevre akciğer parankimine belirgin bası yapıp yaylanmaya sebep olan ve bu alanda kolaps oluşturan kalın cidarlı kistik lezyon tespit edildi (Resim 2). Biyokimyasal tetkiklerde patolojik olarak Hemogramın 9,4 g/dl, CRP'nin 13,7 mg/dl, Amilazın 66,2 U/L, ALP'nin 112 U/L olduğu saptandı. Kist hidatik için yapılan spesifik tetkikler normal olarak değerlendirildi. Ön mediastinal kitlenin timus, lenfoma, teratom ve seminom gibi ön tanılarının ayrımı için istenen kan

α -fetoprotein, β -HCG ve CA 19-9 seviyelerinin hepsi normal geldi. Hastaya tanılal amaçlı bronkoskopi yapıldı, endobronşial kit ile tespit edilmedi. Bronş lavajının patoloji sonucu kronik inflamasyon olarak raporlandı. Hastanın daha önceki tetkikleri incelendiğinde CRP'nin normal seviyelerde olduğu, amilazın sürekli yüksek olduğu tespit edildi. Operasyondan 6 ay önce baş dönmesi nedeniyle gittiği bir dâhiliye uzmanının istemiş olduğu tetkiklerde glukoz 107 mg/dl ve 50 gr oral glukoz testi açlık 82 mg/dl, 1 saat 123 mg/dl değerlerinde bulunmuş, herhangi bir tedavi önerilmemiş. Önemli bir nokta ise hastanın 1 yıl önceki akciğer grafisinin normal olduğu (Resim 1a), 6 ay önce çekilen akciğer grafisinde sağ mediastinal bölgede şüpheli bir görünüm olduğu tespit edildi (Resim 1b). Hızlı büyüyen daha önce olmayan bir yapı olması nedeniyle hastaya operasyon önerildi.

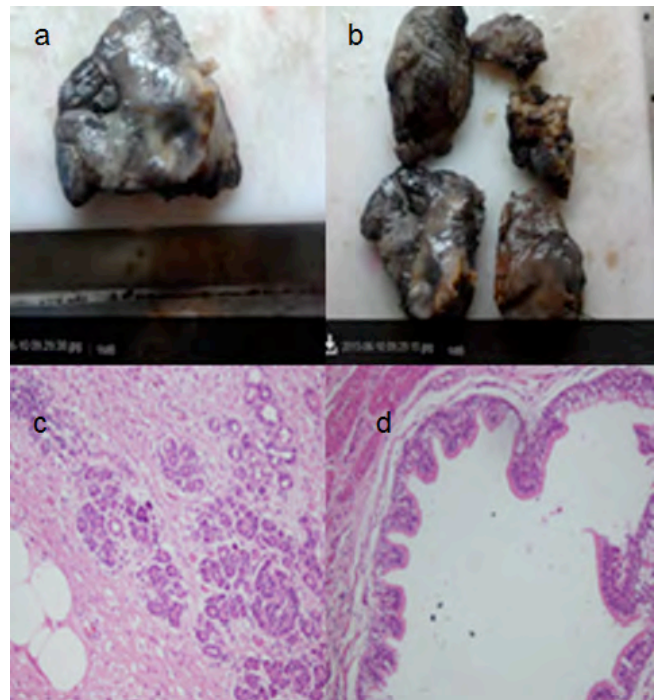
Sağ lateral kas koruyucu torakotomi yapıldı. Eksplorasyonda akciğer parankiminde atelektazi dışında herhangi bir patolojiye rastlanmadı. Parietal plevra altında anterior mediasten ile ilişkili akciğere kompresyon yapmış 170 mm x 90 mm x 100 mm boyutlarında kistik doku palpe edildi. Kist içinden enjektörle 20 cc sıvı aspire edildi. Sıvının siyah renkte ve bulanık olduğu görül-



Resim 2. Preoperatif Çekilen BT Görüntüleri



Resim.1. PA Akciğer grafisinde kistin büyüme süreci, Preoperatif 1 yıl öncesi(A), Preoperatif 6 ay öncesi(B), Ameliyattan Hemen Önce(C), Postoperatif(D)



Resim 3. Makroskopik Görünüm(A-B), Mikroskopik Görünüm(C-D)

dü. Alınan örnek mikrobiyolojiye gönderildi. Kistin gergin olması ve eksizyonu engellemesi nedeniyle 500 cc sıvı içerik aspiratör ile boşaltıldı ve sıvı patolojiye gönderildi. Daha sonra kistik yapı künt ve kesin diseksiyonla total olarak eksize edildi. Eksizyon sonrası yapılan incelemede kist cidarının kalın (10mm-20 mm) olduğu tespit edildi. Göğüs içinde başka patolojiye rastlanmadı. Çıkarılan spesmenin histopatolojik incelemesi ektopik pankreas dokusu içeren matür kistik teratom olarak raporlandı. Makroskopik olarak; en büyüğü 10x6x2 cm, en küçüğü 5x3x1 cm ölçülerinde 5adet koyu kahve renkli düzensiz doku parçaları bulunmaktaydı (Resim 3a, 3b). Kitleden alınan doku örneklerinin incelenmesinde hiyalinize, fibrotik stroma içerisinde lobüler yapılar oluşturmuş asinerler, duktuslar ve adacıkların izlendiği pankreas dokusu gözlemlendi. Ayrıca pankreas çevresinde fokal alanlarda gastrik mukoza, ince bağırsak mukozası, solunum epiteli ile aralarda çizgili ve düz kas dokuları izlendi (Resim 3c, 3d). Hastanın ameliyat sonrası kontrollerinde herhangi bir patoloji rastlanmadı (Resim 1d). Ameliyat sonrası yapılan yetkilerde hemogram, CRP ve glukoz değerlerinin normal, Amilaz değerinin yüksek (70 U/L – 150 U/L) seviyelerde devam ettiği tespit edildi.

Tartışma

Teratomlar üç germinal tabakadan oluşan anormal doku birikimi olarak tanımlanmıştır. İlk mediastinal teratom olgusu 1823'te tanımlanmıştır [1]. Nasıl geliştiği henüz tam anlamıyla açıklanamamıştır. Bu anomalinin gelişiminden sorumlu iki embriyolojik teori vardır. Birincisi; ventral primer ön bağırsak (foregut) pluripotent epitel hücrelerin anormal farklılaşması sonucu görülen ekzokrin pankreas dokusunun, heteroplastik doku olarak mediastene yerleşmesidir. İkincisi ise; pankreastaki hücrelerin migrasyon ya da lokal olarak farklı bölgelere gitmesidir [3]. Özellikle geç adolesan dönemde görülür [1]. Bizim olgumuz da 22 yaşında bayan hastadır.

Gonadal teratom ile birlikteliği olmayan mediastinal teratomlarda, nadiren pankreas dokusuna rastlanabilmektedir. Yapılan otopsilerde ektopik pankreas dokusunun görülme oranı %2 olarak belirtilmiştir ve bunların büyük kısmı (%70-90) gastrointestinal traktusta görülmektedir [3,4]. Suda ve ark. 469 teratom olgusunu içeren çalışmalarında, 17 olguda (%3.62) pankreatik doku içeren teratom saptanmıştır. Bunların 11'i (%2.34) anterior mediastende, beşi (%1) sakrokoksigeal bölgede ve biri retroperitoneal boşlukta saptanmıştır [5].

Ektopik pankreas dokusunun patolojik tanısını koymak için immüno Floresan çalışma ile insülin içeren endokrin kısımları gösterilebilir. İnsülin, glukagon, somatostatin ve pankreatik polipeptid gibi farklı pankreatik hücre tipleri de görülebilmektedir [5]. Bizim olgumuzun kitlesinden alınan doku örneklerinin incelenmesinde hiyalinize, fibrotik stroma içerisinde lobüler yapılar oluşturmuş asinerler, duktuslar ve adacıkların izlendiği pankreas dokusu gözlemlendi. İmmüno Floresan çalışma yapılmadı.

Sıklıkla asemptomatik olup lezyonun büyüklüğüne göre bası bulguları, plevral aralığa rüptüre bağlı semptomlara neden olurlar ve çoğu başlangıçta yakınmasız olup grafilerde tesadüfen rastlanılmaktadır [1,3,6].

En sık görülen komplikasyon olan komşu organ basısı nedeni ile mediastinal teratomların %97'sine tanı direkt toraks radyografileri ile konulabilir [1]. Radyolojik olarak genelde düzgün konturlu bir kitle şeklinde görülür. Tomografi teratom içindeki dokula-

rın tanımlanmasında, lezyonun büyüklüğü ve çevre dokuya yaptığı kompresyon hakkında yardımcıdır. Manyetik rezonans çevre dokularla ilişkisinin daha net değerlendirilmesini sağlar [7]. Bizim vakamızda da akciğer grafisinde düzgün sınırlı, yaklaşık 150 mmx 100 mm boyutlarında opak görünüm tespit edildi. Toraks tomografisinde akciğerde orta lob medial kesimde, kalp ve mediastinal yapılara bası yapan aksiyal boyutları yaklaşık 152 mm x 97 mm ölçülen çevre akciğer parankimine belirgin bası yapıp yayılmaya sebep olan ve bu alanda kollaps oluşturan kalın cidarlı kistik lezyon tespit edildi. Bu tümörler literatürde kistik ve solid olup, yavaş büyürler ve bunların çoğu da kistikdir. Bizim olgumuz literatüre ters olarak 6 ay içinde hızla büyük boyutlara ulaşmıştır.

Benign mediastinal teratomların rezeksiyonu kür sağladığı için radyoterapi ve kemoterapinin tedavide rolü yoktur. Tam rezeksiyon uzun sağ kalım sağlamaktadır. Median sternotomi sıklıkla tümörü çıkarmak için tercih edilen yoldur ama tümörün çapı, lokalizasyonu ve ekspansiyonuna bağlı olarak posterolateral veya anteroposterior torakotomi de seçilebilmektedir. Tedavi sonuçları oldukça iyidir [8]. Bizim olgumuzda da cerrahi rezeksiyon total yapılmış olup takiplerde nüks yada başka bir komplikasyon gelişmemiştir.

Sonuç

Mediastinal teratomlar nadir olarak görülmektedir ve total rezeksiyon sağ kalımda en önemli faktördür. Ön mediastinal kitelerde teratomlar akılda tutulmalı ve içeriğinde pankreas dahil tüm organların olabileceği unutulmamalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Asterioua C, Barbetakisa N, Kleontasa A, Konstantinou D. Giant mediastinal teratoma presenting with paroxysmal atrial fibrillation Interactive. Interact Cardiovasc Thorac Surg 2011;12(2):308-10.
2. Serraj M, Lakranbi M, Ghalimi J, Ouadnouni Y, Smahi M. Mediastinal mature teratoma with complex rupture into the lung, bronchus and skin: a case report. World J Surg Oncol 2013;11:125. doi: 10.1186/1477-7819-11-125.
3. Chen ZH, Yu RS, Dong F, Wang XJ. CT Findings of an ectopic pancreas in the anterior mediastinum. Korean J Radiol 2009;10(5):527-30. doi: 10.3348/kjr.2009.10.5.527.
4. Szabados S, Lenard L, Tornoczky T, Várady E, Verzár Z. Ectopic Pancreas Tissue Appearing in a Mediastinal Cyst. J Cardiothorac Surg 2012;7:22. doi: 10.1186/1749-8090-7-22.
5. Suda K, Mizuguchi K, Hebisawa A, Wakabayashi T, Saito S. Pancreatic tissue in teratoma. Arch Pathol Lab Med 1984;108(10):835-837.
6. Yadav CM, Shah BK. Mature Teratoma of posterior mediastinum. Pak J Med Sci 2003;19(3):226-7.
7. Albayrak İ, Tarladaçalışır T, Köse S, Kaçal S. Dev mediastinal teratom. J Clin Anal Med 2013; DOI:10.4328/JCAM.2118.
8. Takeda S, Miyoshi S, Ohta M, Minami M, Masaoka A, Matsuda M. Primary germ cell tumors in the mediastinum. A 50-year experience at a single Japanese institution. Cancer 2003;97(2):367-76.

How to cite this article:

Günay Ş, Aslan S, Şenol T, Eser İ, Vurupalmaz Ö. Giant Mediastinal Cystic Teratoma Involving Pancreatic Tissue and Showing Rapid Development. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 521-3.



Primary Gliosarcoma: Two Case Reports and Revision of the Literature

Primer Gliosarkom: İki Vaka Sunumu ve Literatürün Gözden Geçirilmesi

Primer Gliosarkom / Primary Gliosarcoma

Vildan Kaya¹, Mustafa Yıldırım², Ayşen Yeşim Yalçın¹, Ethem Göksu³, Elif İnanç Güner⁴

¹Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyasyon Onkolojisi AD, Isparta,

²T.C. Sağlık Bakanlığı Türkiye Kamu Hastaneleri Kurumu Batman İli Kamu Hastaneler Birliği Batman Bölge Devlet Hastanesi, Tıbbi Onkoloji, Batman,

³Akdeniz Üniversitesi Tıp Fakültesi, Beyin ve Sinir Cerrahisi AD, Antalya, ⁴Akdeniz Üniversitesi Tıp Fakültesi, Patoloji AD, Antalya, Türkiye

Özet

Primer gliosarkom, glial ve metaplazik mezenkimal komponentlerden oluşan, bifa-zik, nadir görülen, kötü prognozlu intrakranial bir tümördür ve yaşamın 6. ve 7. de-kadında daha sık görülür. Glioblastomun bir varyantı olmasına rağmen ancak ge-netik profili glioblastomdan farklıdır. Gliosarkomda sarkomatöz komponent, pro-lifere olan tümör damarlarının malign transformasyonu ile oluşur. Tümör karak-teristikleri; yaş, cinsiyet, ırk, tümör çapı, yerleşim, sağkalım oranları, radyoterapi kullanımı tüm malign glial neoplazmlar ile benzerdir. Gliosarkoma klinik olarak ag-resif seyirli olup oldukça kötü bir prognoza sahiptir. Glioblastom gibi tedavi edil-mesi önerilmektedir. Bu yazımızda primer gliosarkom nedeniyle takip ettiğimiz iki hasta, hastalığın nadir görülmesi nedeniyle güncel literatür eşliğinde tartışılmıştır.

Anahtar Kelimeler

Gliosarkom; Radyoterapi; Prognoz

Abstract

Primary gliosarcoma is a kind of tumor, which is a biphasic, rarely seen and com-posed of glial and metaplasial mesenchymal components with a poor prognosis that more common in the 6th and 7th decades of life. Although it is a variant of glioblastoma, the genetic profile is different from glioblastoma. In gliosarcoma, sarcomatous components arise from proliferating tumor vessels with malignant transformation. Tumor characteristics is similar with all malignant glial neoplasm, in the meaning of age, gender, race, tumor size and location, survival rates and the use of radiation therapy. Gliosarcoma, which is clinically aggressive, has con-siderably poor prognosis. It is recommended to be treated like glioblastoma. In this article, two patients that followed with primer gliosarcoma have been dis-cussed in recent literature because of the rarity of disease.

Keywords

Gliosarcoma; Radiotherapy; Prognosis

DOI: 10.4328/JCAM.2606

Received: 04.06.2014 Accepted: 05.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 524-6

Corresponding Author: Vildan Kaya, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Radyasyon Onkolojisi AD, 32260, Isparta, Türkiye.

GSM: +905334797408 F: +90 24621 12832 E-Mail: vildansimsir@yahoo.com

Giriş

Primer gliosarkom, glial ve mezenkimal diferansiyasyon gösteren, bifazik, nadir görülen, kötü prognozlu intrakranial bir tümördür ve yaşamın 6. ve 7. dekadında daha sık görülür [1]. World Health Organization (WHO) 2007 santral sinir sistemi tümörleri histolojik sınıflandırmasında Grade IV olarak tanımlanmıştır. Gliosarkom'lar glioblastom varyantı olup, % 1.8-2.8'sini oluşturur [2].

Bu yazımızda primer gliosarkom nedeniyle takip ettiğimiz iki hasta, hastalığın nadir görülmesi nedeniyle güncel literatür eşliğinde tartışılmıştır.

Olgu Sunumları

Olgu 1

Hastanemize epileptik atak, fasial paralizi, konuşmada zorlanma, baş ağrısı ve sol tarafta uyuşma ile başvuran 72 yaşında ki kadın hasta serebrovasküler olay ön tanısıyla hastaneye yatırıldı. Hastaya çekilen difüzyon Manyetik rezonans görüntüleme (MRG)'de sağ parietal lobda dura ile bağlantısı bulunmayan, presantral girus posteriorunda çevresel yoğun kontrast tutulumu gösteren 1.8 x 1.3 cm kitle lezyonu, MRG Spektroskopi'de de noradrenalin düzeyinde düşüklük, laktat ve kolin düzeylerinde belirgin artış bulguları saptandı. Bu bulgularla yüksek gradlı glial tümör lehine düşünülen hastaya beyin cerrahisi tarafından sağ frontoparietal kraniotomi ile gross total eksizyon uygulandı. Histopatolojik incelemede glioblastom ve sarkomatöz alanlar içeren bifazik doku paterni tespit edildi ve gliosarkom olarak değerlendirildi (Resim 1 ve 2).

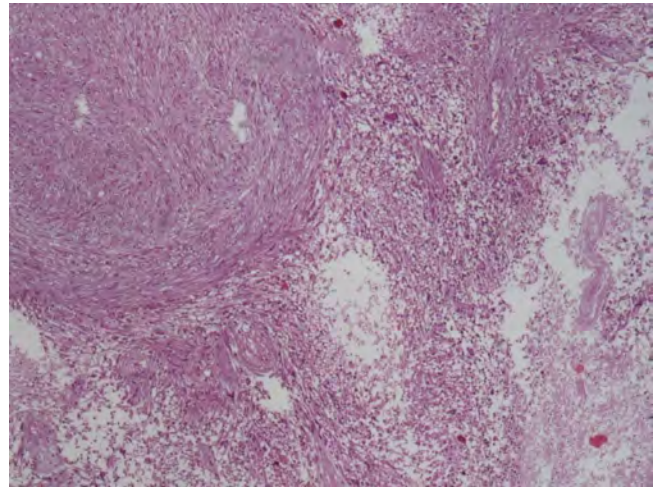
Hastaya operasyon sonrası izosentrik alan tekniği kullanılarak 6 MV fotonlarla 2 Gy/fraksiyon dozunda primer tümör+ödem+2 cm bölgesine 46 Gy sonrasında, primer tümör+ödem+1,5 cm'e 14 Gy boost yapılarak toplam 60 Gy eksternal Radyoterapi (RT) uygulandı. Ayrıca RT ile eş zamanlı olarak 75mg/m2 Temozolamid kemoterapi (KT)'si aldı. RT sonrası 9. ayda hastalığına bağlı kaybedildi.

Olgu 2

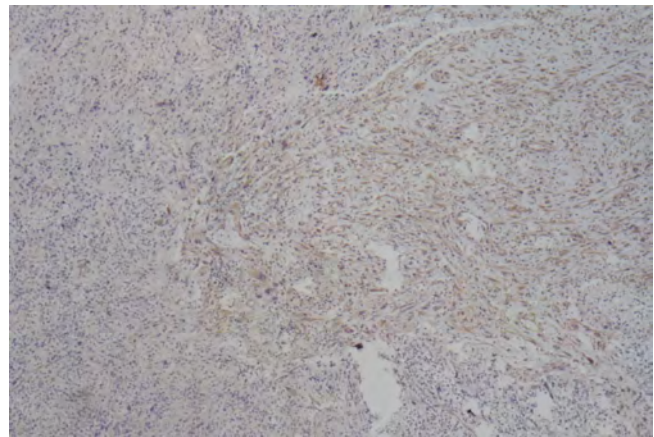
Baş ağrısı ve sağ kol ve bacakta güçsüzlük nedeniyle yapılan başvuran 58 yaşında erkek hasta beyin tümörü ön tanısıyla hastaneye yatırıldı. Çekilen kontrastlı Beyin MRG'da, sol parietotemporalde yaklaşık 5 cm çapında kitle tespit edildi. Subtotal rezeksiyon uygulanan hastanın operasyon patolojisi gliosarkom olarak değerlendirildi. Ardından kliniğimizde izosentrik alan tekniği kullanılarak 6 MV fotonlarla 2 Gy/fraksiyon dozunda primer tümör+ödem+2.5 cm bölgesine 46 Gy sonrası, primer tümör+ödem+2 cm'e 14 Gy boost yapılarak toplam 60 Gy eksternal RT uygulandı. Ayrıca RT ile eş zamanlı olarak 75mg/m2 Temozolamid KT'si aldı. RT sonrası 9. ayda intrakranial abse nedeniyle cerrahi uygulanan hastada rezidü tümör dokusuna rastlanmadı. RT sonrası 14. ayında sırtında ekspansil kitle ortaya çıkan hastanın sağ toraks duvarından alınan biyopsisi malign mezenkimal tümör olarak geldi ve definitif amaçlı KT alması planlandı. RT sonrası 16. ayında takibi devam etmektedir.

Tartışma

Gliosarkom terimi ilk kez 1898 yılında H.Strobe tarafından kullanılmış ve 1954 yılında da I. Feigin tarafından iki farklı karakterdeki kaynaktan geliştiği gösterilmiştir. Gliosarkomlar önce-



Resim 1. Olgu 1'in HemotoksilenX100 gliomatöz ve sarkomatöz alanlar



Resim 2. Olgu 1'in Vimentin X100 gliomatöz ve sarkomatöz alanlar

sinde glioblastom olup olmamasına göre primer ve sekonder glioblastomlar olarak ikiye ayrılırlar. Sekonder gliosarkomlar glioblastom rekürrensi tanısı ile opere edilen hastalarda tespit edilmektedir [3]. Gliosarkomlu hastaların en sık başvuru semptomları; bulantı, fokal nörolojik defisit, baş ağrısı gibi intrakranial basınç artışına bağlı olarak görülen semptomlardır. Glioblastomlarda metastaz nadiren görülür. Gliosarkomlar ise glioblastomlardan daha sık olsa da, nadiren metastaz yaparlar [4]. Bazı vakalarda ektranöral disseminasyonla akciğer, kemik ve lenfatik ganglionlara yayıldığı gösterilmiştir [3].

Glioblastomun bir varyantı olmasına rağmen ancak genetik profili farklıdır. Gliosarkomda sarkomatöz komponent, proliferen olan tümör damarlarının malign transformasyonu ile oluşur [1]. Glial hücrelerden kaynaklanan gliomatöz ve sarkomatöz komponentlerin her ikisinden de aynı genetik profiller elde edilmiştir. Bütün bunlar, monoklonal orjin kavramını ve sarkomatöz komponentin anormal mezenkimal diferansiyasyonla malign astrositik neoplazma dönüşümünü destekler [5].

Tümör karakteristikleri; yaş, cinsiyet, ırk, tümör çapı, yerleşim, sağkalım oranları ve tedavi yöntemleri tüm malign glial tümörler ile benzerdir [1]. Multimodal tedavi yöntemlerine rağmen prognozu kötüdür. Glioblastom gibi tedavi edilmesi önerilmektedir [4].

Histopatolojik evreleme, neoplazmin biyolojik davranışının tahmin edilmesinin bir yoludur. Klinikte tümör gradi, adjuvan RT ve spesifik KT protokollerinin tedavide seçimi etkileyen önemli bir faktördür. Tedavi seçimini etkileyen diğer bir faktör de ge-

nomik özellikleridir. Gliomatöz komponent, endotelial proliferasyon ve nekrozun izlendiği astrositik diferansiyasyon gösteren malign hücrelerle tanımlanır. Diğer komponenti ise mezene-kimal işi hücrelerden oluşur. Gliomatöz komponentinde glial fibriller asidik protein (GFAP) pozitif'dir. Genetik profili, seyrek EGFR amplifikasyonu dışında primer glioblastomlara benzerdir [6]. Ancak, O6-metilguanin DNA metil transferaz (MGMT) metilasyonu ve İzositrat dehidrogenaz (IDH) 1/2 mutasyonları hakkında ise bilgiler sınırlıdır.

Pek çok araştırmacı, gliosarkomlu hastalarda farklı kemoterapötik ajanlar denemişlerdir. Hatta bazı araştırmacılar kendi hastalarına kemoterapi bile önermemiştir. Güncel bir çalışmada, başlangıçta glioblastom tanısı ile RT eş zamanlı Temozolamid KT'si sonrası sekonder gliosarkom gelişen hastalarda Temozolamid KT'sinin sağkalım oranlarını düşürdüğü gösterilmiştir [7]. Bu fark, glioblastom ve gliosarkomun farklı genetiği ve KT'ye cevabının farklı olmasıyla açıklanabilir. Bir başka retrospektif çalışmada, primer gliosarkomlu 12 hastada % 50'sinde MGMT pozitifliği ve sağkalıma katkısı gösterilmiştir [8].

Gliosarkom klinik olarak agresif seyirli olup oldukça kötü bir prognoza sahiptir. Bu hastalarda Temozolamid KT'si kullanımının sağkalıma etkisi, MGMT ve IDH 1/2 mutasyonlarının, hastalığın tedavisini yönlendirmedeki rolü gibi konular hala aydınlatılamamıştır. Agresif seyirli ve nadir görülen bu hastalığın, öncelikle histopatolojik olarak tanınması, prognostik faktörlerin ve yönetiminin aydınlatılması için yeni çalışmalara ihtiyaç olduğunu düşünüyoruz.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Han SJ, Yang I, Tihan T, MD Prodos. Primary gliosarcoma: key clinical and pathologic distinctions from glioblastoma with implications as a unique oncologic entity. *J Neurooncol* 2010;96(3):313-20.
2. Lutterbach J, Guttenberger R, Pagenstecher A. Gliosarcoma: a clinical study. *Radiother Oncol* 2001;61(1):57-64.
3. Dawar R, Fabiano AJ, Qiu J, Khushalani NI. Secondary gliosarcoma with extracranial metastases: a report and review of the literature. *Clin Neurol Neurosurg* 2013;115(4):375-80.
4. Bakar B, Yazıcı İ, Kose EA, Ayva SK, Kasımcı MO. Glioblastoma located in posterior fossa. *J Clin Anal Med* 2013;4(1):61-3.
5. Singh G, Mallick S, Sharma V, Joshi N, Purkait S, Jha P, et al. A study of clinicopathological parameters and O⁶-methylguanine DNA methyltransferase (MGMT) promoter methylation status in the prognostication of gliosarcoma. *Neuropathology* 2012;32(5):534-42.
6. Reis RM, Konu-Leblebicioglu D, Lopes JM, Kleihues P, Ohgaki H. Genetic profile of gliosarcomas. *Am J Pathol* 2000;156(2):425-32.
7. Han SJ, Yang I, Otero JJ, Ahn BJ, Tihan T, McDermott MW, et al. Secondary gliosarcoma after diagnosis of glioblastoma: clinical experience with 30 consecutive patients. *J Neurosurg* 2010;112(5):990-6.
8. Kang SH, Park KJ, Kim CY, Yu MO, Park CK, Park SH, et al. O6 methylguanine DNA methyltransferase status determined by promoter methylation and immunohistochemistry in gliosarcoma and their clinical implications. *J Neurooncol* 2011;101(3):477-86.

How to cite this article:

Kaya V, Yıldırım M, Yalçın AY, Göksu E, Güner Eİ. Primary Gliosarcoma: Two Case Reports and Revision of the Literature. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 524-6.



Optic Neuropathy Secondary to an Onodi Cell Mucocele in a Child

Bir Çocukta Onodi Hücreli Mukosele İkincil Oluşan Optik Nöropati

İkincil Optik Noropati / Secondary Optic Neuropathy

Emine Cinici¹, Hasan Kahveci², Arzu Tatar³, Ibrahim Kocer⁴

¹Erzurum District Training and Research Hospital, Department of Ophthalmology,

²Erzurum District Training and Research Hospital, Department of Pediatrics,

³Erzurum District Training and Research Hospital, Department of Ear, Nose And Throat,

⁴Ataturk University Medical Faculty, Department of Ophthalmology, Erzurum, Turkey

Özet

Onodi hücre optik sinir ile sıkı bir şekilde bağlantılıdır. Onodi hücre patolojileri, kompresyon sonucu optik nöropati ve görmede bozulmaya neden olabilir. Bize on gün içinde baş ağrısı ve görmede ilerleyici kayıp şikayetiyle başvuran 13 yaşındaki erkek hastada Onodi hücreli mukosel'in neden olduğu retrobulber optik nöropati tablosunu belirledik. Multi-slice paranasal bilgisayarlı tomografi ve kranial manyetik rezonans görüntüleme, sol sfenoid sinüsden kaynaklanan bir retansiyon kisti (Onodi hücreli mukosel) ve inflamasyonla uyumlu olarak raporlandı. Hasta herhangi bir komplikasyon olmadan başarılı bir şekilde transnasal sfenoetmoidektomi ile tedavi edildi. Histopatolojik değerlendirmede poliplerde Onodi Hücreli Mukosel tespit edildi. Ameliyat sonrasında hastanın görme keskinliği tam iyileşti. Akut veya kronik görme kaybı şikayetiyle göz, kulak burun boğaz ve çocuk doktorlarına başvuran çocuk hastalarda tespit edilen retrobulber optik nöropati etyolojisinde onodi hücreli mukoselide unutmamak gerekir.

Anahtar Kelimeler

Mukosel; Optik Nöropati; Çocuk

Abstract

Onodi cell is intimately related to the optic nerve. Onodi cell pathologies may result compressive optic neuropathy and poor visual outcome. We have identified for the first time in the 13-year-old male patient retrobulbar optic neuropathy caused by mucocele in an Onodi cell. This case presented with headaches and progressive loss of vision in his both eye within ten days. Multi-slice paranasal computed tomography and cranial magnetic resonance imaging showed a retention cyst (Onodi cell mucocele) that arose from left component of the sphenoid sinus, and Onodi cell inflammation. The patient was treated successfully by elective transnasal sphenoethmoidectomy without any complications. Histopathological evaluation revealed polyps in Onodi cell. Postoperatively, the patient's visual acuity full were recovered. Ophthalmologists, otorhinolaryngologists, and pediatricians should consider Onodi cell mucocele in the etiology of retrobulbar optic neuropathy when a pediatric patient presents with acute or chronic loss of vision.

Keywords

Mucocele; Optic Neuropathy; Child

DOI: 10.4328/JCAM.2609

Received: 05.06.2014

Accepted: 05.07.2014

Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 485-7

Corresponding Author: Emine Cinici, Department of Ophthalmology, Erzurum District Training and Research Hospital, Erzurum, Turkey.

T.: +90 4422325275 F.: +90 4422325090 E-Mail: dreminecinici@hotmail.com

Introduction

The Onodi cell was first described by Adolf Onodi in 1904. The Onodi cell is recognized as an anatomical variant, where the most posteriorly-positioned ethmoid cells enlarges into the body of the sphenoid bone that surround the optic nerve, which pneumatizes laterally and superiorly to the sphenoid sinus. Its clinical significance relates to the relative position of the Onodi cell to the optic nerve^{1,2}. In the literature, the incidence of Onodi cells varies from 8–to 13% in the radiological findings but the rate is % 60 in cadaveric studies¹. It has been reported to be more prevalent in Asia compared to the Western countries (60% vs. 39%)³. In the recent study, Onodi cells were observed more frequently in the Far East than in Western countries and 98.1% of them were identified on preoperative paranasal sinus computed tomography⁴. Many cases of large sphenoid-ethmoidal mucocoele manifesting as visual disturbances have been reported. However, isolated mucocoele of an Onodi cell causing optic neuropathy is rare. Isolated mucocoele an Onodi cell is an extremely unusual cause of compressive optic neuropathy^{2,5}. Compressive retrobulbar optic neuropathy secondary to mucocoele in Onodi cells and optic neuropathy secondary to sinusitis in Onodi cells have been reported in adult patients 1–8. Here, we present the first report of a pediatric patient with bilateral gradual loss of vision due to an isolated Onodi cell mucocoele, with full recovery after elective surgery.

Case Report

A 13-year-old male patient presented to our clinic with loss of vision in both eyes that started 15 days previously and gradually worsened, accompanied by headache. He had no history of nasal or paranasal sinus inflammation or surgical manipulation. An ophthalmological examination indicated a best corrected visual acuity of 5/10 in the right eye, and vision in the left eye was limited to counting fingers at 1 m. Intraocular pressure and eye movements were normal in both eyes. However, the patient showed a relative pupillary defect and color vision deficiency. A fundus examination revealed that both optic discs were edematous. Neurological examination results were otherwise normal. Biochemical, hematologic, and immunological markers were normal. Skull radiography showed no abnormalities. Under a diagnosis of suspected bilateral optic neuritis, the patient was given oral amoxicillin-clavulanic acid and intravenous methylprednisolone. On day 3 of treatment, the best corrected visual acuity had improved to 10/10 in the right eye, although there was no improvement in the left eye.

Differential diagnoses were retrobulbar optic neuritis, infective optic neuropathy, compressive optic neuropathy and posterior ischaemic optic neuropathy. Multislice computed tomography (CT) of the paranasal sinuses revealed Onodi cell inflammation in the left component of the sphenoid sinus, in close proximity to the course of the optic nerve (Fig. 1). Cranial magnetic resonance imaging (MRI) showed a retention cyst measuring 17 × 13.9 mm (Onodi cell mucocoele), originating from the left component of the sphenoid sinus, and lying next to the left optic canal. The cyst was isointense on fluid attenuated inversion recovery (FLAIR) images, hypointense on T1-weighted images, and hyperintense on T2-weighted images (Fig. 2). A radiological diagnosis of compressive retrobulbar optic neuropathy second-

ary to an Onodi cell mucocoele was made.

The patient underwent transnasal sphenoidectomy. The diagnosis was confirmed intraoperatively. The retention cyst in the left sphenoid sinus was drained. Histopathological examination revealed a cystic mass rich in ciliated epithelium, fibrosis, hyalinization, and interstitial tissue. A postoperative ophthalmic examination at 1 week showed a best corrected visual acuity of 10/10, normal pupillary light reflex, and normal color vision. There were no problems during the 8-year follow-up, and the patient has remained stable.

Discussion

Onodi cell is intimately related to the optic nerve. Thus, Onodi cell pathologies may result in ophthalmological complication as a rhinogenic optic neuropathies and poor visual outcome⁸. Retrobulbar optic neuropathy caused by mucocoele may be explained by several mechanisms. Optic neuropathy is caused by mechanical compression of the optic nerve, circulatory disturbance of the vasa nervorum due to the mechanic compression, or optic neuritis due to inflammation^{1-3,5}.

Radiologic imaging is essential to preoperative diagnosis; specifically, CT scans are required to demonstrate anatomical variations. If the thickness of the slices is greater than the width of the Onodi cell, variations cannot be differentiated^{1,6}. MRI scans are also required to determine the protein content of the Onodi cell material and to differentiate the nature of the lesion, including mucocoele, pyocoele, and tumor². We established the diagnosis, as described in the literature, by CT of the paranasal sinuses and cranial MRI. Multislice paranasal CT and cranial MRI showed a retention cyst (Onodi cell mucocoele) measuring 17 × 13.9 mm and arising from the left component of the sphenoid sinus, and Onodi cell inflammation (Fig 1,2). All reported cases of optic neuropathy secondary to an isolated Onodi cell mucocoele have been in adult patients 1-3,5,7-8. in a 41-year-old male patient; by Kitagawa et al.⁷ in a 73-year-old male patient; by Lim et al.³ in a 60-year-old male patient; by Wu et al.¹ in a 28-year-old male patient; by Fukuda et al.² in a 45-year-old male patient; and by Taflan et al.⁶ in a 61-year-old

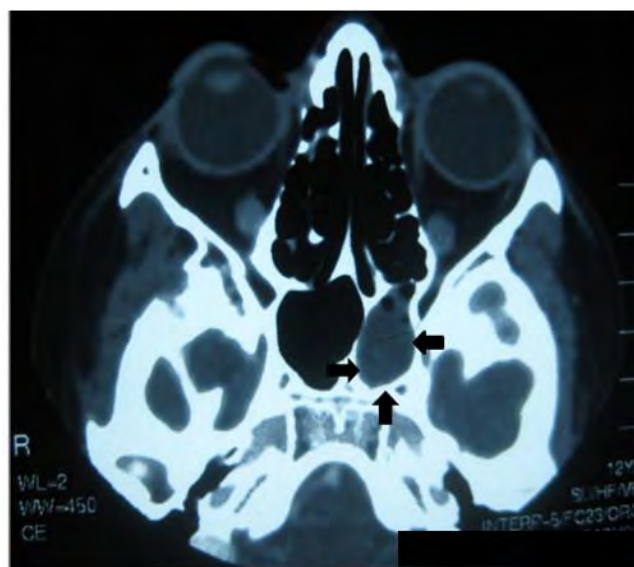


Figure 1. Multislice computed tomography images of the paranasal sinuses reveal Onodi cell inflammation in the sphenoid sinus, in close proximity to the course of the optic nerve (arrows).

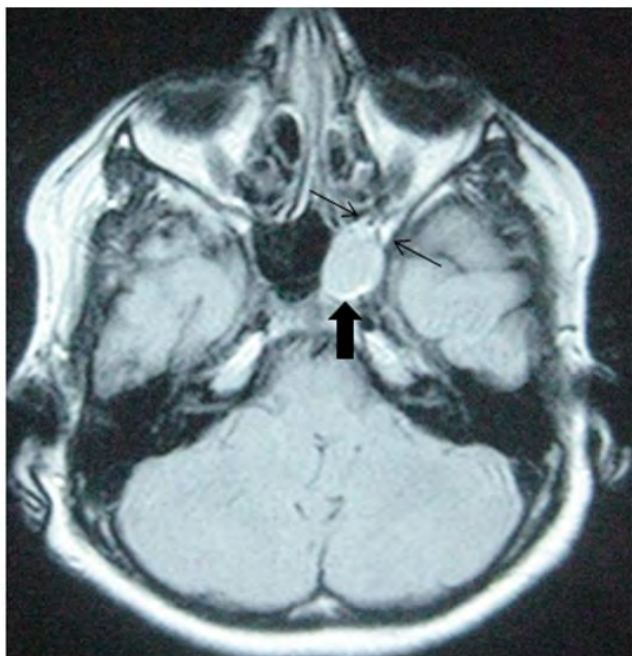


Figure 2. Cranial magnetic resonance images show a retention cyst (Onodi cell mucocoele) lying next to the left optic canal, with an isointense appearance on axial cross-section FLAIR (arrows).

female patient. Fukuda et al.⁸ reported a bilateral case in a 79-year old female patient. The youngest patient reported to date, by Wu and colleagues¹, was 28 at the time of diagnosis. To our knowledge, our patient represents the first reported pediatric case. As such, this case demonstrates that Onodi cell mucocoele should be included in the etiology of compressive optic neuropathy in pediatric patients.

The best surgical approach is the subject of conjecture among surgeons. The transcranial approach may minimize the risk of optic nerve injury when a small Onodi cell mucocoele is close to the optic nerve. However, brain parenchyma injury, leakage of cerebrospinal fluid, and possible contamination of the cerebrospinal fluid by mucocoele contents are frequent and serious complications of this approach². The endoscopic, transnasal approach lacks these complications and is a less invasive technique. The patient was treated successfully by elective transnasal sphenoidectomy without any complications. Vision has been fully restored. In our patient we saw that an immediate decompression of the optic nerve led to considerable improvement of visual acuity and field, even in a case of drastic functional impairment.

In conclusion, ophthalmologists, otorhinolaryngologists, and neuroradiologist should be familiar with the rare occurrence of the Onodi cell mucocoeles causing optic neuropathy. As delays in diagnosis and treatment increase the risk for vision loss, it is crucial to approach such cases in a multidisciplinary manner, maintaining close contact among medical staff. Ophthalmologists, otorhinolaryngologists, and pediatricians should consider Onodi cell mucocoele in the etiology of retrobulbar optic neuropathy in pediatric patients presenting with acute or chronic loss of vision.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Wu W, Sun MT, Cannon PS, Jianbo S, Selva D. Recovery of visual function in a patient with an Onodi cell mucocoele compressive optic neuropathy who had a 5-week interval between onset and surgical intervention: case report. *J Ophthalmol* 2010; DOI: 10.1155/2010/483056.
2. Fukuda H, Fukumitsu R, Andoh M, Suzuki T, Yamana N, Kataoka H, et al. Small Onodi cell mucocoele causing chronic optic neuropathy: case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2010;50(10):953–5.
3. Lim SA, Sitoh YY, Lim TC, Lee JC. Right rhinogenic optic neuritis secondary to mucocoele of the Onodi cell: clinics in diagnostic imaging. *Singapore Med J* 2008;49(1):84–7.
4. Shin JH, Kim SW, Hong YK, Jeun SS, Kang SG, Kim SW, et al. The Onodi cell: an obstacle to sellar lesions with a transsphenoidal approach. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2011;145(6):1040–2.
5. Taflan T, Güngör I, Cengel Kurnaz S, Güngör L. Optic neuropathy secondary to inflammation of sphenoidal sinuses and Onodi cell polyps: a case report. *Ocul Immunol Inflamm* 2013;21(3):1–4.
6. Toh ST, Lee JC. Onodi cell mucocoele: rare cause of optic compressive neuropathy. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2007;133(11):1153–6.
7. Kitagawa K, Hayasaka S, Shimizu K, Nagaki Y. Optic neuropathy produced by a compressed mucocoele in an Onodi cell. *Am J Ophthalmol* 2003;135(2):253–4.
8. Fukuda Y, Chikamatsu K, Ninomiya H, Yasuoka Y, Miyashita M, Furuya N. Mucocoele in an Onodi cell with simultaneous bilateral visual disturbance. *Auris Nasus Larynx* 2006;33(2):199–202.

How to cite this article:

Cinici E, Kahveci H, Tatar A, Kocer İ. Optic Neuropathy Secondary to an Onodi Cell Mucocoele in a Child. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 485–7.



Penetrating Cardiac and Hepatic Injury; Polytrauma of a Child After Bombing

Penetran Kardiyak ve Hepatik Yaralanma; Bombalama Sonrası Politravmalı Çocuk Olgusu

Penetran Kardiyak ve Hepatik Yaralanma / Penetrating Cardiac and Hepatic Injury

Barış Akça¹, Mustafa Tuşat²

¹Kalp ve Damar Cerrahisi Kliniği, ²Pediyatrik Cerrahi Kliniği, Kilis Devlet Hastanesi, Kilis, Türkiye

Özet

Hastalar bombalı saldırının ardından blast, penetran ve yanık bileşenleri olan farklı yaralanma kombinasyonları ile politravma olguları olarak hastaneye getirilirler. Bombalama sonucunda oluşan penetran torakoabdominal yaralanmalarda kardiyak yaralanma olasılığının unutulmaması gerekir. Çocuklarda penetran kardiyak yaralanma nadir görülmekle birlikte yüksek mortalite ve morbiditeye sahiptir. Bazı durumlarda penetran kardiyak yaralanma tanısı koymada zorluk yaşanabilir. Çalışmamızda bombalama eylemi kaynaklı penetran kalp ve karaciğer yaralanması ayrıca yanıkları olan politravmalı çocuk olgunun tanı, tedavi ve takip sürecini paylaşmak istedik.

Anahtar Kelimeler

Kardiyak Ruptür; Travmatik; Travma, Multipl; Çocuk

Abstract

After a bombing attack, patients were brought into hospital suffering from a combination of injuries caused by the blast, penetrating injuries and burns which as a case of polytrauma. In penetrating thoracoabdominal injuries due to bombing possibility of cardiac injury should be kept in mind. Penetrating cardiac injuries in children are rare but has a high mortality and morbidity. In some cases there may be difficulty in diagnosis of penetrating cardiac injury. In this case we want to share the diagnosis, treatment and follow-up processes of penetrating cardiac and hepatic injury with burns of a polytrauma child due to bombing.

Keywords

Cardiac Rupture; Traumatic; Trauma, Multiple; Child

DOI: 10.4328/JCAM.2612

Received: 07.06.2014 Accepted: 08.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 530-2

Corresponding Author: Barış Akça, Kilis Devlet Hastanesi, Kalp ve Damar Cerrahisi Kliniği, Kilis, Türkiye.

T.: +90 3488135201/1327 F.: +90 3488133413 E-Mail: dr.baris.akca@yandex.com.tr

Giriş

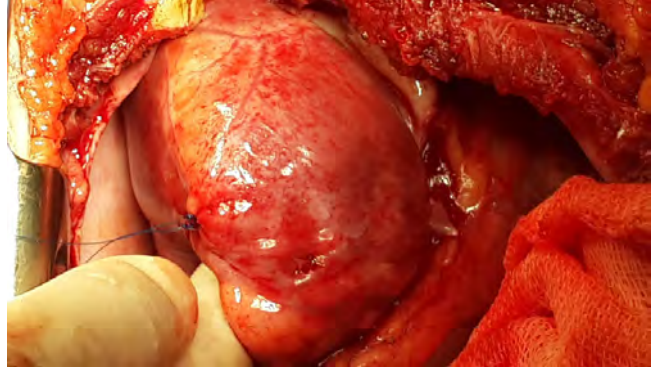
Penetran kardiyak yaralanmaların yüksek oranda ölümcül olduğu ve hastaneye sağ gelen olguların yaklaşık %80' inin hayatını kaybettiği bilinmektedir [1]. Çocuklarda nadir görülen penetran kardiyak yaralanma konusunda literatürde bilgi yetersiz olup yayınlanan olgu serileri incelendiğinde pediatrik yaş grubundaki kardiyak travmaların öncelikli nedeni kazaların neden olduğu künt travmalardır [2].

Çocuklarda penetran kardiyak travma dramatik ve ölümcüldür. Hastaların çoğu şok tablosunda veya ölü olarak hastaneye getirilmektedir [3].

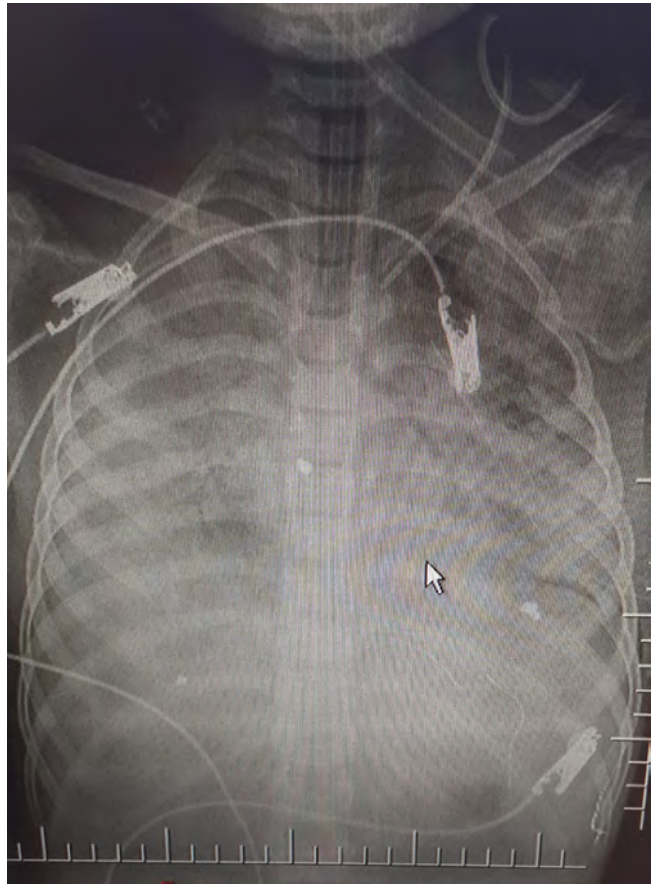
Makalemizde bombalama eylemi kaynaklı penetran kalp ve karaciğer yaralanması ayrıca yanıkları olan politravmalı çocuk olgunun tanısı, tedavisi ve takip sürecini paylaşmak istedik.

Olgu Sunumu

12 yaşında erkek hasta, bombalanma sonucu oluşan şarapnel yaralanması ve yanık nedeniyle acil servisimize getirildi. Fizik muayenesinde, genel durumu kötü ve entübe olan hastanın kalp hızı: 150 atım / dk, tansiyon: 80 / 60 mmHg ölçüldü. Epigastrik bölgede ksifoid çıkıntı alt ucundan başlayarak sağa oblik seyreden 10 x 5 cm boyutunda, dikdörtgen şeklinde, kanayan karaciğer parçalarının vücut dışına çıktığı yaralanması mevcuttu. Göğüs ön kısmında ve sırtta çok sayıda küçük şarapnel girişi vardı. Yüzün tamamında 3. derece, her iki el sırtı ve avuçlarda 2. derece yanık ayrıca sağ alt ekstremité ile bilateral üst ekstremitéde 4 x 4 cm boyutlarını aşmayan multiple açık yaralanma mevcuttu. Kardiyak yaralanma düşünülen hastada, zayıf hemodinamik verilere rağmen yapılan bilgisayarlı tomografi'de (BT) kalp yaralanması görülmeydi. Sol hemitoraksta, plevral efüzyon ve kontüzyon tespit edilen hastaya göğüs tüpü takıldı. Drenaj sistemine aktif kanama olmadığı gözlemlendi. Hasta karaciğer laserasyonuna müdahale edilmek üzere acil ameliyata alındı. Batın eksplorasyonunda karaciğer segment 4a'yı içeren laserasyon ve aktif kanama odakları olduğu gözlemlendi. Kanamanın kontrol altına alınması esnasında diyafragma centrum tendineum anterioruna uyan bölgede batına kanayan 0,5 cm'lik yaralanma tespit edildi. Bunun üzerine yapılan sol anterior torakotomide perikardiyal hematoma ve kanayan perikard yaralanması görüldü. Kardiyovasküler cerrahi ameliyata dahil oldu. 0,5 cm'lik perikardiyal yaralanma apex'e uzun eksende yaklaşık 2 cm mesafedeydi ve aktif olmayan kanaması mevcuttu. Kalp perikard içinde sola deviasyon gösterirken, sağ atrium üzerinde hematoma vardı. Perikard, yaralanma sahasından frenik sinir korunarak kalbin luksasyonuna sebep olmayacak şekilde aorta doğru yeterli ekspojüre sağlanana kadar açıldı. Perikardiyal hematoma boşaltıldı. Sağ ventrikül diafragmatik yüzünde ve anteriora 2 adet 0,5 cm'lik kardiyak yaralanma görüldü. Aktif kanama yoktu. Yaralanma sahasları 4 - 0 prolene ile primer sutureasyonla onarıldı (Resim 1). Kanama kontrolü yapılarak perikard açık bırakıldı. Diyafragmadaki yaralanma primer sutureasyonla onarıldı. Toraks'ın kapatılmasını takiben batın yaralanmasına müdahale edilerek lasere karaciğer segmentinin uçları birbirine yaklaştırıldı. Ayrıca transvers kolondaki 3 adet, jejunumdaki 2 adet perforasyon primer suture edildi. Hasta ameliyat sonrasında pediatrik yoğun bakım olmaması nedeniyle genel yoğun bakıma alınarak 10 gün sorunsuz, entübe takip edildi. 11. gün oksijen saturasyonunda düşme ($\text{SaO}_2 < 90$) olan hastanın akciğer grafisindeki sol plevral efüzyon nedeniyle tüp torakostomi yapıldı. Oksijen saturasyonu tedricen düşmeye devam eden hasta, gelişen alveolar ödemin mortal seyreden akut respiratuar distress sendromu (ARDS) tablosuna ilerlemesiyle ameliyattan 15 gün sonra kaybedildi. (Resim 2).



Resim 1. Anterior torakotomi yapılarak eksplore edilen kalbin sağ ventrikül penetran yaralanma sahasları ve primer sutureasyonla tamiri görülmektedir.



Resim 2. P-A akciğer grafisinde, yaygın alveolar ödemle karakterize buzlu cam görüntüsü. (ARDS akciğeri)

Tartışma

Patlayıcı saldırıları tehdidi, dünya çapında bir sorun haline gelmiştir. Bombalama patlayıcı saldırılarında tercih edilen bir yöntemdir [4]. Bombalı saldırıyı takiben hastalar blast etkisi, penetran yaralanma ve yanık bileşenlerinin kombinasyonları ile politravma olguları olarak yerel hastanelere ve hekimlere getirilir [5]. Bu hastalara yaklaşım ve tedavideki özellik travma cerrahları ve acil hekimleri için giderek daha önemli hale gelmektedir [6].

Hastamız penetran kalp ve karaciğer yaralanması, vücudun farklı bölümlerindeki yanıklar ve blast yaralanmasıyla bombalı

saldırıda yaralanmaya dair tüm bileşenleri içermektedir.

Prekordiyal yaralanması olan tüm hastalarda kardiyak laserasyon ihtimali akılda tutulmalıdır [7]. Penetran kalp yaralanması tanısı özellikle hemodinamisi stabil olmayan hastalarda zor olabilir.

Olgumuzda toraks BT'de kardiyak yaralanmadan şüphelenilmedi. Stabil olmayan hemodinami, BT'den şüphelenilmemesi ve nisbeten uzun süre gerektirmesi nedeniyle transtorasik ekokardiyografi yapılmadan acil ameliyata alındı. Kalp yaralanması tesadüfen ameliyat esnasında tespit edilerek müdahalesi yapıldı. Penetran kalp yaralanması hayatı tehdit eden, genellikle acil cerrahi müdahale ve iyi bir cerrahi teknik ile ameliyat sonrası dönemde kritik bakım gerektiren bir durumdur [7]. Hastamız ameliyat sonrasında pediatrik yoğun bakım olmaması nedeniyle multitravma hastaları konusunda deneyimli çalışanların olduğu genel yoğun bakıma alınarak takip edildi. 10 gün sorunu olmayan hastada önce alveolar ödem akabinde ARDS gelişti.

Akut hipoksemik solunum yetmezliği (AHRF), pediatrik yoğun bakım ünitesindeki büyük çabalara rağmen ARDS tablosuna ilerleyerek ve diğer organ yetmezliklerine neden olarak çocuklarda anlamlı morbidite ve mortaliteye neden olur. Gelişmiş ülkelerde pediatrik yoğun bakım ünitesine kabul edilen hastalarda AHRF ve ARDS insidansı %0.7 – %4.2 olup mortalite yaklaşık %20 – %30 civarındadır [8]. Gelişmekte olan ülkelerde mortalite %50 – %70 düzeylerine kadar çıkmaktadır [9].

Sonuç

Politravmalı penetran yaralanması olan çocuklarda hemodinamiyi bozacak birçok neden olabilir. Bunların en önemlisi penetran kalp yaralanmasıdır. Zamanla yarışılan bu olgularda hemodinaminin elverdiği ölçüde kalp yaralanmasının ekarte edilmesi hayati önem taşımakla birlikte, tanı koymada zorluk yaşanabileceği unutulmamalıdır. Ayrıca, politravma olgularının özellikle de çocukların ARDS gelişimine aday hastalar olduğu akılda tutularak, takiplerinin pediatrik yoğun bakım şartlarında yapılması gerektiği kanaatindeyiz.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Grbolar A, Korkmaz Ö, Sapmaz İ, Saba T, Sapmaz F. Penetran Kalp Yaralanması: Olgusu Sunumu. J Clin Anal Med 2014;5(2):151-3.
2. Göz M, Cakir O, Eren MN. Penetrating cardiac trauma in children. Ulus Travma Acil Cerrahi Derg 2010;16(3):220-4.
3. Campbell NC, Thomson SR, Muckart DJ, Meumann CM, Van Middelkoop I, Botha JB. Review of 1198 cases of penetrating cardiac trauma. Br J Surg 1997;84:1737-40.
4. Almog G, Mintz Y, Zamir G, Bdolah-Abram T, Elazary R, Dotan L. Suicide bombing attacks: Can external signs predict internal injuries? Ann Surg 2006;243(4):541-6.
5. Hall RC, Hall RC, Chapman MJ. Medical and psychiatric casualties caused by conventional and radiological (dirty) bombs. Gen Hosp Psychiatry 2006;28(3):242-8.
6. Mekel M, Bumenfeld A, Feigenberg Z, Ben-Dov D, Kafka M, Barzel O. Terrorist suicide bombings: Lessons learned in Metropolitan Haifa from September 2000 to January 2006. Am J Disaster Med 2009;4(4):233-48.
7. Aksöyek A, Tütün U, Babaroğlu S, Parlar AI, Ulus AT, Katircioğlu SF. Penetrating cardiac injuries. Ulus Travma Acil Cerrahi Derg 2007;13(2):135-141.
8. Khemani RG, Conti D, Alonzo TA, Bart RD 3rd, Newth CJ. Effect of tidal volume in children with acute hypoxemic respiratory failure. Intensive Care Med 2009;35(8):1428-37.
9. Lu Y, Song Z, Zhou X, Huang S, Zhu D, Yang C, Bai X. A 12-month clinical survey of incidence and outcome of acute respiratory distress syndrome in Shanghai intensive care units. Intensive Care Med 2004;30(12):2197-203.

How to cite this article:

Akça B, Tuşat M. Penetrating Cardiac and Hepatic Injury; Polytrauma of a Child After Bombing. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 530-2.



A Case of Severe Mercury Intoxication with Unknown Source

Kaynağı Bilinmeyen Şiddetli Bir Civa İntoksikasyon Vakası

Civa Zehirlenmesi / Mercury Intoxication

Meşide Gündüzöz¹, Ceylan Bal², Murat Büyükkşekerci³, Özge Han⁴, Engin Tutkun⁵

¹Department of Family Medicine, Occupational Diseases Hospital, ²Department of Biochemistry, Occupational Diseases Hospital,

³Department of Pharmacology, Occupational Diseases Hospital, ⁴Department of Pathology, Güven Hospital,

⁵Department of Toxicology, Occupational Diseases Hospital, Ankara, Turkey

Özet

Makalemizde 43 yaşında civa maruziyeti olan erkek bir hastayı sunduk. Hastanın ilk muayenesinde; şiddetli uyku bozukluğu, kilo kaybı, metalik tat hissi ve ciddi tat bozukluğu gibi non-spesifik semptomlar saptandı. Civa maruziyet kaynağı saptanamadı fakat hasta hastaneye başvurmadan 10 gün öncesine kadar Çin Tıbbına ait kaynağı bilinmeyen çeşitli bitkisel ilaçları düzensiz olarak kullandığını ifade ediyordu ve uzun yıllardır dumansız tütün (Maraş Otu) kullanıcısıydı. Hastanın civa şelasyon tedavisi devam ederken, timoma saptandı ve timektomi uygulandı.

Anahtar Kelimeler

Civa; Bitkisel ilaç; Timoma

Abstract

In our article we presented a 43 year-old mercury exposed male. In his medical examination, we found non-specific symptoms like severe taste disorder, metallic taste in mouth, weightloss, severe sleep disorders. Origin of mercury exposure could not be detected, but the patient reported irregular usage of various herbal medicine with unknown source, belonging to Chinese Medicine, until ten days before admission and was also a user of smokeless tobacco (Maraş Powder) for long years. During chelation therapy for mercury intoxication, thymoma was diagnosed and thymectomy was applied.

Keywords

Mercury; Herbal Medicine; Thymoma

DOI: 10.4328/JCAM.2621

Received: 13.06.2014 Accepted: 11.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 533-5

Corresponding Author: Ceylan Bal, Osmangazi Mah. Atıklar sok. No:45 06280 Keçiören, Ankara, Türkiye.

GSM: +905057458438 F.: +90 3125808404 E-Mail: ceylandemirbal@gmail.com

Introduction

Mercury is a heavy metal of known toxicity. Human toxicity varies with the form, dose and rate of mercury exposure. It can adversely affect many systems predominantly central and peripheral nerve system [1]. As a result, various manifestations of clinical features can be seen in exposed patients. Chronic and high-dose acute mercury exposed individual may experience rather vague and non-specific symptoms that could be indicative of a number of diseases [2]. Human exposure to mercury is mostly caused by outgassing of mercury from dental amalgam, ingestion of contaminated fish, or occupational exposure [3]. In the literature there has been some cases with undetectable origin of mercury exposure [4]. Here in, we present 43-year-old male of unknown origin mercury exposure with non-specific symptoms.

Case Report

Clinical Evaluation

A 43 year-old male patient presented with severe taste disorder and weight loss. He reported progressive symptoms, initially began with loss of bitter and finally sweet taste sensation. Also, he had a disturbance of metallic taste in mouth. In the past 6 months, the patient was complaining from severe sleep disorders. His weight loss was 10 kg for one year period. In neurological examination, only horizontal nystagmus and (+) Romberg was found. Electromyographic findings were normal. In Nuclear Magnetic Resonance (NMR) imaging of brain, non specific signal alterations, including isodense lesions on T1-weighted images, hyperdense on T2-weighted images, were found. In physical examination of tongue, papillary atrophy was not inspected, but 4 amalgam fillings were seen. In routine laboratory examination, hepatic and renal function parameters and electrolyte, autoantibody, complement and immunoglobulin levels were found to be normal. In the chest radiography, upper mediastinal widening and homogeneous density in the right mediastinum localised retrosternally was reported by radiologists. In thorax computerized tomography, 93 x 60 mm, with definite margins, lobulated mass (thymoma ?) was characterized (Figure 1). In the

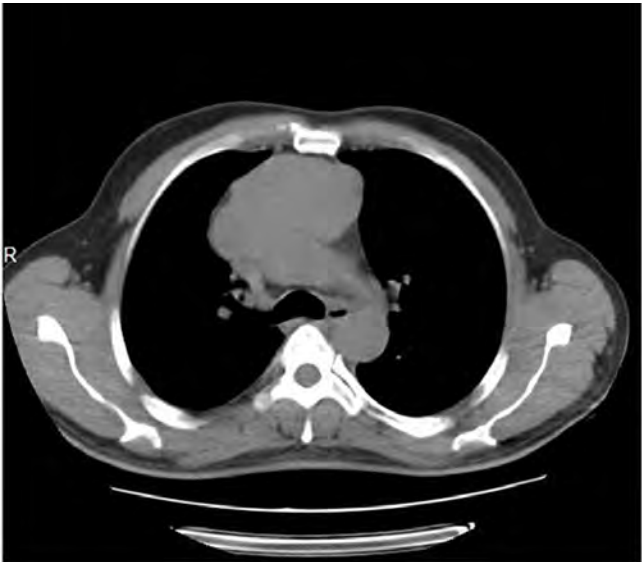


Figure 1. Thorax CT : 93 x 60 mm, with definite margins, lobulated mass (thymoma ?)

abdominal ultrasonography, a 28 mm hypodens lesion (heman-gioma) was detected. On the 7th day of chelation therapy, the patient was operated and thymoma was surgically removed with open thoracotomy. The pathological examination revealed the diagnosis of Type B1 thymoma. Microscopic examination of sections from the mass showed an encapsulated tumor tissue comprised of many lobules of variable size seperated by thin fibrous septa were seen. A few epithelial cells without atypia among abundant lymphocytes resembling normal thymic tissue (Figure 2a). The epitheliel cells did not form cellular agregats or sheets...There were numerous scattered pale medullary foci in tumor tissue. (Figure 2b). Diagnosis was accepted as thymoma, type B1

Toxicological laboratory analysis, including urinary solvent parameters (phenol, mandelic acid, metilhippuric acid, , trichloro-acetic acid, 2-5 Hexanedione) were within normal range. In toxic metal analysis (Table 1); urine concentration of total chromium was 16.3µg/L. The concentrations of the mercury in urine and in blood were 1724 µg/L (1289 µg/gr creatinine) and 275 µg/L, respectively. These values were higher than proposed biological exposure indices by American Conference of Governmental Industrial Hygienists (ACGIH-USA).

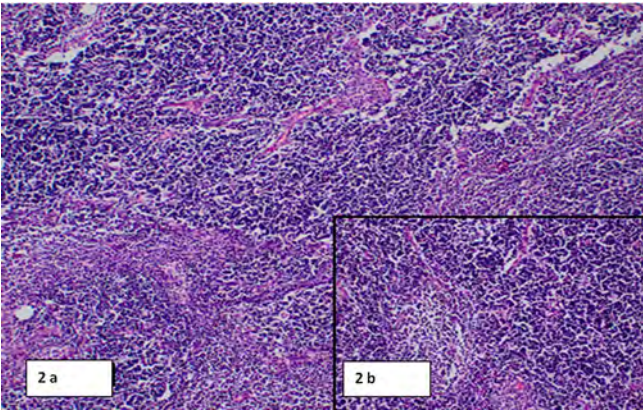


Figure 2. A few epithelial cells without atypia among abundant lymphocytes resembling normal thymic tissue (H&Ex100)(A). Pale staining medullary differentiation foci (H&Ex100)(B).

Table 1. Urinary and Whole Blood Toxic Metal Levels

Urinary toxic metal	Measured values	Biological Exposure Index*
Mercury (ug/g creatinine)	1289	35
Arsenic (ug/L)	25,52	35
Chromium (ug/L)	16,33	10
Whole blood metal	Measured values	Biological Exposure Index*
Mercury (ug/L)	275	15
Cadmium (ug/L)	0,1	5

*Cited from ACGIH 2011

Exposure History

Probable sources of mercury exposure were asked to the patient. There was no history of occupational exposure or accidental contact. One month prior to admission, there was no history of fish eating. The patient reported using smokeless tobacco (Maras Powder) which is a traditional habit widely seen in Southeastern Region of Turkey for long years. The patient also reported using various herbal medicine irregularly with unknown source, belonging to Chinese Medicine, for ten days before admission.

Medical Treatment

Chelation therapy with intravenous (2,3-dimercaptopropane-1-sulfonate (DMPS) was initiated with 100 mg twice a day dose regimen. The excretion of mercury was monitored with 24 hour urine and blood mercury levels (Figure 3). On the 7th day of therapy, chelation was stopped because of surgical operation for thymoma. The chelation therapy was re-started on 21st day with 100 mg three times a day orally and continued for 20 days.

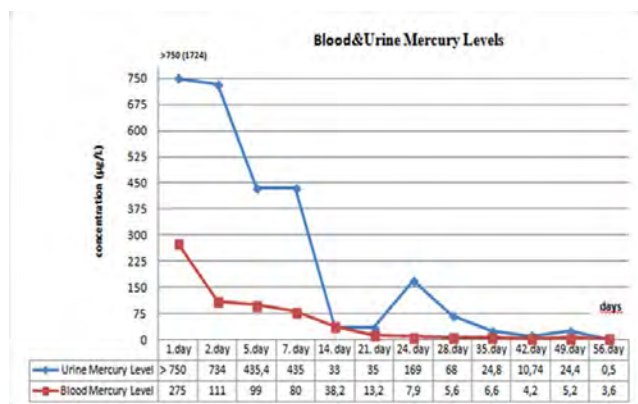


Figure 3. Blood and urinary mercury levels in chelation therapy

Discussion

Mercury, which exists as organic and inorganic forms, is a well-known heavy metal because of its toxic properties. Besides occupational exposure, many other types of exposure have been reported in the literature [4]. Due to herbal medicine use in patients' history, toxic metal was measured in biological specimen. In literature, toxic metal exposure have been reported in Chinese herbal and Ayurvedic medicine many times. [6,7]. The concentrations of the mercury in urine and in blood were 1724 µg/L (1289 µg/gr creatinine) and 275 µg/L, respectively.

There are only a few mercury intoxication cases with such mercury levels in the literature. Erkek N. et al [8] reported that a 10 year old girl had been referred to hospital with gastroenterological symptoms and later her blood and urine mercury concentrations were 5380 µg/L and 91 µg/L respectively. Urine mercury concentration of a patient who was poisoned with metallic mercury vapour in England was measured as 1213 µg/g creatinin by Forman J et al. [9].

In the literature, we couldn't find any publication which relates mercury exposure to thymoma. Mercury exposure has been known to effect immune system, but the exact relation is obscure. Mercury exposure alter human immun system either by increasing or decreasing the immune activity where this effect depend on individuals' genetic predisposition. [10,11]. Further studies should be done which investigates the relationship between immune system, thymoma and mercury exposure.

In our case, the source of mercury exposure could not be identified thoroughly. The mercury levels of family members and work friends were measured and found to be within normal range. There was no clue, even after repeated questioning of family members. The most suspicious source of exposure was smokeless tobacco (Maras Powder). Maras Powder or *Nicotiana rustica* Linn is composed of powder form of wild tobacco plant and ashes of oak, walnut and vine stems, with a ratio of one-half or one-third. In traditional use, a small amount of this mixture

is packaged with cigarette rolling paper and put into space between lower lip and gingiva. Then, it is spat out. This application is repeated continuously during all day and it is known that, in case of severe addiction, some people sleep with this powder. It is produced by villagers of rural areas of Southern Region of Turkey [12,13]. In the vicinity, it is known that, in the absence of stem ash, producers use "coke coal ashes" in low quality and cheap production series. It is strongly probable that, in the near past use of patient, he was exposed to mercury from such kind of low quality production [14,15].

As a conclusion, there many common, but also extreme sources of mercury exposure and mercury intoxication should be remembered in the presence of different symptoms by the clinician.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Rice KM, Walker EM Jr, Wu M, Gillette C, Blough ER. Environmental mercury and its toxic effects. *J Prev Med Public Health* 2014;47(2):74-83.
2. Broussard L, Hammett-Stabler CA, Winecker RE, Roper-Miller JD. The toxicology of mercury. *Lab Med* 2002;33(8):614-25.
3. Park JD, Zheng W. Human exposure and health effects of inorganic and elemental mercury. *J Prev Med Public Health* 2012;45(6):344-52.
4. Michaeli-Yossef Y, Berkovitch M, Goldman M. Mercury intoxication in a 2-year-old girl: A diagnostic challenge for the physician. *Pediatr Nephrol* 2007;22(6):903-6.
5. Wu ML, Deng JF, Lin KP, Tsai WJ. Lead, mercury, and arsenic poisoning due to topical use of traditional Chinese medicines. *Am J Med* 2013;126(5):451-4.
6. Saper RB, Kales SN, Paquin J, Burns MJ, Eisenberg DM, Davis RB et al. Heavy metal content of ayurvedic herbal medicine products. *JAMA* 2004;292(23):2868-73.
7. Erkek N, Senel S, Sarac A, Ertan U, Karacan CD. Being alive after a severe inorganic mercury intoxication. *Eur J Pediatr* 2010;169(5):625-8.
8. Forman J, Moline J, Cernichiari E, Sayegh S, Torres JC, Landrigan MM et al. A cluster of pediatric metallic mercury exposure cases treated with 2,3-dimercaptosuccinic acid (DMSA). *Environ Health Perspect* 2000;108(6):575-7.
9. Langworth S, Elinder CG, Sundquist KG, Vesterberg O. Renal and immunological effects of occupational exposure to inorganic mercury. *Br J Ind Med* 1992;49(6):394-401.
10. Cárdenas A, Roels H, Bernard AM, Barbon R, Buchet JP, Lauwerys RR et al. Markers of early renal changes induced by industrial pollutants. I. Application to workers exposed to mercury vapour. *Br J Ind Med* 1993;50(1):17-27.
11. Dönbak L, Celik M, Demirhan I, Nagas S. Genotoxic damage in Maras powder consumers from Kahramanmaraş province of Turkey. *Genetika* 2007;43(5):633-8.
12. Sardas S, Cimen B, Karsli S, Yurdun T, Donbak L. Comparison of genotoxi effect between smokeless tobacco (Maras powder) users and cigarette smokers by the alkaline comet assay. *Hum Exp Toxicol* 2009;28(4):214-9.
13. Xin M, Gustin MS, Ladwig K, Pflughoeft-Hassett DF. Air-substrate mercury exchange associated with landfill disposal of coal combustion products. *J Air Waste Manag Assoc* 2006;56(8):1167-76.
14. Gustin MS, Ladwig K. An assessment of the significance of mercury release from coal fly ash. *J Air Waste Manag Assoc* 2004;54(3):320-30.

How to cite this article:

Gündüz M, Bal C, Büyükkşerci M, Han Ö, Tutkun E. A Case of Severe Mercury Intoxication with Unknown Source. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 533-5.



A Case with Red Man's Syndrome

Kırmızı Adam Sendromu: Olgu Sunumu

Kırmızı Adam Sendromu / Red Man's Syndrome

Onur Güre¹, Sertaç Çelikel²

¹Department of Cardiovascular Surgery, ²Department of Anesthesiology and Intensive Care, Hospitalium Hospitals Çamlıca, İstanbul, Turkey

Özet

"Kırmızı adam" sendromu vankomisin tedavisinin bilinen en sık yan etkilerinden biridir. Halen bu yan etki mekanizması üzerinde tartışmalar bulunsada belirtiler doz ayarlaması ve antihistaminiklerle azaltılabilir. Yazımızda koroner arter cerrahisi sonrası mediastinit oluşan ve vankomisin tedavisi altında "kırmızı adam" sendromu gelişen 50 yaşındaki olgu sunulmuştur. Tedavide kortikosteroid ve antihistaminik başlanmış, ilaç infüzyon hızı azaltılmış ve vankomisin dozu bölünerek verilmiştir.

Anahtar Kelimeler

Vankomisin; Sendrom; Yan Etkiler

Abstract

"Red man's" syndrome is one of the common side effects of vancomycin treatment. Although some controversies are still exist on the mechanism of this side effect, the symptoms could be diminished with modification in dose regimens and antihistaminics. In this report, we present a case of 50-year old man who developed "red man's" syndrome with vancomycin treatment, which was given for mediastinitis following coronary artery bypass graft surgery. For treatment, corticosteroids and antihistaminics were given, drug infusion rate was decreased, and dose of vancomycin was divided.

Keywords

Vancomycin; Syndrome; Adverse Effects

DOI: 10.4328/JCAM.2623

Received: 12.06.2014 Accepted: 14.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 536-8

Corresponding Author: Onur Güre, Suadiye, Çamlı Sokak, Adalar Apt, No: 27 D: 20, İstanbul, Turkey.

GSM: +905322381528 E-Mail: meddrog@gmail.com

Introduction

Vancomycin, a glycopeptide antibiotic, has reliable antimicrobial activity against many gram-positive microorganisms which are resistant to beta-lactam antibiotics, thus is mostly used in the treatment of suspected or proven gram-positive bacterial infections particularly caused by methicillin resistant *Staphylococcus aureus* (MRSA). For example, vancomycin is used for the perioperative prophylaxis for bacterial endocarditis and prophylaxis or treatment of cerebrospinal fluid shunt-related infections in patients with penicillin or cephalosporin allergy [1,2]. Like many drugs vancomycin causes wide spectrum of adverse events, including vancomycin-induced allergic reactions like anaphylaxis, drug-induced fever, eosinophilia, itchy and erythematous skin rashes, toxic epidermal necrolysis, vasculitis, neutropenia, nephrotoxicity, and red man syndrome [1–3]. “Red man’s” or “red neck” syndrome and anaphylaxis are two types of hypersensitivity reactions caused by vancomycin. “Red man’s” syndrome is a well-known hypersensitivity reaction which occurs during vancomycin and teicoplanin treatment [4]. Following rapid infusion of antibiotic, histamine release from the mast cells causes symptoms of “red man’s” syndrome such as flushing, erythematous discoloration and pruritus over the face, neck, and upper part of the body accompanying with hypotension and myocardial depression [1–5]. Burning or itching erythematous lesions, agitation, dizziness, headaches, chills, fever, and perioral paresthesia are also described in this syndrome [3,4]. In this report, we present a patient who developed “red man’s” syndrome with vancomycin treatment, which was given for mediastinitis following Coronary Artery Bypass Graft (CABG) surgery.

Case Report

A 50-year old man developed mediastinitis following on-pump CABG operation. He was observed intubated with mechanical ventilator in cardiac surgery intensive care unit. MRSA has been found in his tracheal aspirate and skin leakage. On the basis of antibiogram results, vancomycin was given 2x1 g/day in 100 cc 0.09% saline solution through one hour intravenous infusion. At the 4th day of treatment, disseminated or partly banded itchy and erythematous rashes accompanied with hypotension have been developed particularly at the upper part of the body (Figure 1). Following dermatological evaluation, “red man’s” syndrome has been diagnosed. Prednisolone 0.5 mg/kg and diphenhydramine, an antihistaminic drug, have been added to patient’s treatment. Vancomycin dose regimen has been rearranged as 4x500 mg/day, and the infusion rate was doubled. The red rashes were initially transformed into brownish color in a week and disappeared with desquamation in three weeks (Figure 2). Treatment was continued for 14 days. The patient was discharged at 28th postoperative day with whole body in brownish color.

Discussion

“Red man’s” syndrome has a relatively high incidence with intravenous administration of vancomycin, but it also occurs with oral or intraperitoneal administration [3,4]. The incidence of this syndrome is reported to be 3–47% of patients, and 90% of healthy volunteers in different studies [4]. Differences in



Figure 1. Erythematous and itchy rashes at the upper part of the body.



Figure 2. Brownish and desquamate rashes at the upper part of the body.

vancomycin doses or infusion rates effects the incidence and severity of the syndrome [6]. Symptoms can relieve when the infusion rate is decreased. To be protected of this syndrome, the infusion rate should be slower than 10 mg/min, and the drug should be given in 50 cc or 100 cc isotonic saline solution. The treatment of “red man’s” syndrome is symptomatic. Corticosteroids may be used when antihistaminic are not effective. Treatment with combined H1 and H2 receptor antagonists is more effective than single antihistaminic therapy. Corticosteroids and antihistamines can be used together for severe cases. Hypotension should be treated with intravenous fluid infusions and rarely with inotropic drugs.

In our case, we decreased the drug infusion rate and divided the dose of vancomycin into four times a day. We used both corticosteroids and antihistaminics for relief of symptoms and inotropic drugs to treat the hypotension.

As a conclusion, “red man’s” syndrome is one of the common side effects of vancomycin treatment. Although some controversies are still exist on the mechanism of this side effect, the symptoms could be diminished with modification in dose regimens and antihistaminics. Teicoplanin and linezolid may be alternative to vancomycin in cases with “red man’s” syndrome.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Hung YP, Lee NY, Chang CM, Lee HC, Wu CJ, Chen PL, et al. Tolerability of teicoplanin in 117 hospitalized adults with previous vancomycin-induced fever, rash, or neutropenia: a retrospective chart review. *Clin Ther* 2009;31(9):1977-86.
2. Apuya J, Klein EF. Stridor accompanying red man's syndrome following perioperative administration of vancomycin. *J Clin Anesth* 2009;21(8):606-8.
3. Bailey P, Gray H. An elderly woman with 'Red Man Syndrome' in association with oral vancomycin therapy: a case report. *Cases J* 2008;1(1):111.
4. Wilson AP. Comparative safety of teicoplanin and vancomycin. *Int J Antimicrob Agents* 1998;10(2):143-52.
5. Marik PE, Ferris N. Delayed hypersensitivity reaction to vancomycin. *Pharmacotherapy* 1997;17(6):1341-4.
6. Kwon HS, Chang YS, Jeong YY, Lee SM, Song WJ, Kim HB, et al. A case of hypersensitivity syndrome to both vancomycin and teicoplanin. *J Korean Med Sci* 2006;21(6):1108-10.

How to cite this article:

Gürer O, Çelikel S. A Case with Red Man's Syndrome. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 536-8.



A Rare Case Report: Plasmacytoid Urothelial Carcinoma of the Urinary Bladder

Nadir Bir Olgu Sunumu: Mesanenin Plazmasitoid Ürotelyal Karsinomu

Plazmasitoid Ürotelyal Karsinom / Plasmacytoid Urothelial Carcinoma

Mehmet Karabakan¹, Serkan Akdemir², Alp Özgür Akdemir², Özer Güzel², Aysel Çolak³
¹Erzincan Üniversitesi Mengücek Gazi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Üroloji Kliniği, Erzincan,
²Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Üroloji Kliniği, Ankara,
³Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Kliniği, Ankara, Türkiye

Özet

Plazmasitoid ürotelyal karsinom ürotelyal karsinomun nadir bir varyantıdır ve literatürde yaklaşık olarak 70 kadar olgu bildirilmiştir. Bu histolojik varyant hakkında veriler kısıtlıdır. Hematüri şikâyeti ile başvuran 46 yaşındaki erkek hastaya transüretral rezeksiyon uygulandı. Spesmenlerin mikroskopik incelenmesinde plazmasitoid görünüm mevcuttu. Hastaya sistemik kemoterapide gemitabin ve sisplatin uygulandı. Bu makalede, invaziv, lenf nodu pozitifliği olan, plazmasitoid ürotelyal karsinom vakasının tanı ve tedavisi sunulmaktadır.

Anahtar Kelimeler

Plazmasitoid Ürotelyal Karsinom; Hematüri; Mesane

Abstract

Plasmacytoid urothelial carcinoma is a rare variant of urothelial carcinoma and approximately 70 cases have been reported in the literature. This histologic variant has limited data. 46-year-old male patient who is presented with complaints about hematuria underwent transurethral resection. During the microscopic examination, specimens had plasmacytoid appearances. With chemotherapy, gemcitabine and cisplatin were administered to the patient. In this article, the diagnosis and thereatment of plasmacytoid urothelial carcinoma case that has invasion and lymphnode positivity is presented.

Keywords

Plasmacytoid Urothelial Carcinoma; Hematuria; Urinary Bladder

DOI: 10.4328/JCAM.2625

Received: 16.06.2014 Accepted: 07.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 539-41

Corresponding Author: Mehmet Karabakan, Basbaglar mah, 1430 Sokak, PK. 24000, Erzincan, Turkey.

GSM: +905367678034 E-Mail: karabakanm@hotmail.com, mkarabakan@yandex.com

Giriş

Ürotelyal karsinomun plazmasitoid varyantı Dünya Sağlık Örgütü'nün son sınıflamasında ürotelyal karsinomun nadir varyantı olarak tanımlanmıştır. İngilizce literatürde bildiğimiz kadarıyla şimdiye kadar yaklaşık olarak yalnızca 70 olgu bildirilmiştir[1]. Mevcut veriler, bu tümör tipinin genellikle saldırgan ve ileri evrede tanı aldığını düşündürmektedir [2,3]. Son dönemde yayınlanan geniş vaka serilerinde hastaların hem metastaz hemde potansiyel kür şansı olduğu görülmüştür[4].

Bu makalede çok nadir olarak izlenmesi nedeniyle plazmasitoid özellikler taşıyan, yüksek dereceli ürotelyal karsinom tanısı alan 46 yaşındaki erkek olgunun klinik bulgularını ve tümörün histopatolojik özelliklerini sunmayı amaçladık.

Olgu Sunumu

46 yaşında erkek hasta kliniğimize son 2 hafta içinde gelişen hematüri ve dizüri şikâyetleri ile başvurdu. Hastanın özgeçmişinde mitral kapak replasmanı, hipertansiyon ve epilepsi hastalıkları mevcuttu. Tetkiklerinde biyokimyasal parametreleri normaldi. Bilgisayarlı tomografide (BT) mesane posterior duvarına oturan yaklaşık 4x2 cm boyutta patolojik görünüm izlendi (Figür 1). Prostat konturları düzensiz, santrali nekrotik parankimi he-

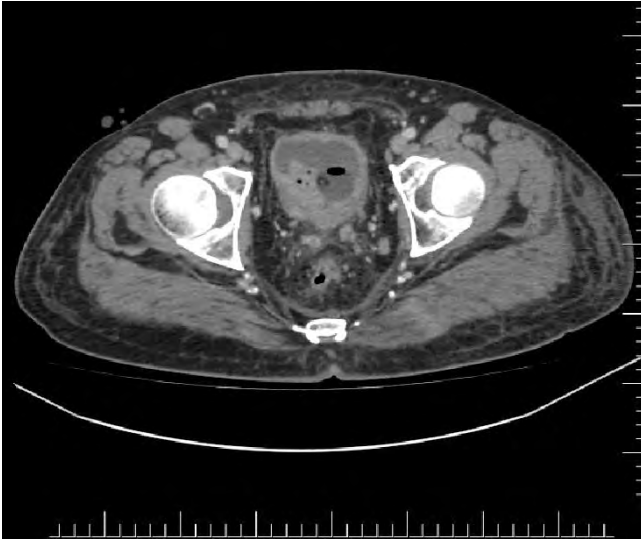


Figure 1. Bilgisayarlı tomografide (BT) mesane posterior duvarına oturan yaklaşık 4x2 cm boyutta patolojik görünüm izlendi.

terojen olup prostatın mesane ve rektum ile net ara plan ayırımı izlenemedi. Bilateral parailiak yerleşimli büyüklüğü 26 mm çapa ulaşan nekrotik görünümde lenfadenopati (LAP) kitleleri izlendi. Tüm vücut kemik sintigrafisinde metastaz izlenmedi. Yapılan sistoskopik değerlendirmede prostat dokusu nekrotize sınırları belli belirsiz izlendi, mesane boynundan çepeçevre mesaneye doğru uzanım gösteren reaksiyone tümöral doku izlendi. Tümöral dokunun rezeksiyonu yapıldı. Patolojik değerlendirmede mesane kas yapılarına infiltrasyon gösteren plazmositoid tip yüksek grade ürotelyal karsinom olarak raporlandı. Mikroskopide plazma hücrelerine benzeyen eozinofilik stoplazmalı, düzensiz nükleuslu ürotelyal hücreler görüldü. İmmunohistokimyasal değerlendirmede ise AE1/AE3, epitelyal membran antijen (EMA) ve CD138 pozitifliği saptandı (Figür 2-a,b,c,d). Hastaya kemoterapi 4 kür sisplatin ve gemesitabin protokolü uygulandı. Hastanın tedaviye başladıktan sonra 18. ayında yapılan kontrol BT'

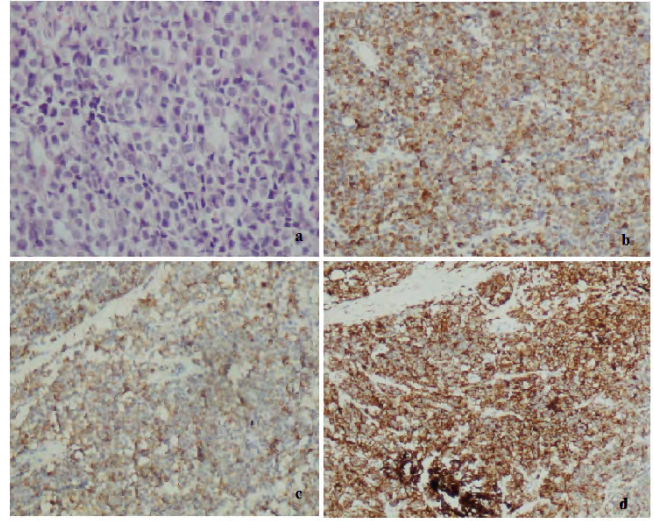


Figure 2. Plazma hücrelerine benzeyen malin hücrelerin düzensiz nükleusları ve bol eozinofilik stoplazmaları izlenmektedir (Hematoxylin ve eosin stain x400)(A). AE1/AE3 pozitif x200(B), EMA pozitif x200(C), CD138 pozitif x200(D).

sinde: sağ akciğer posterior bazalde subplevral 15 mm büyüklüğünde nodül olduğu saptandı. Hastanın takip ve tedavisi medikal onkoloji bölümünce devam edilmektedir.

Tartışma

İlk olarak 1991 yılında Şahin et al. tarafından raporlanan plazmasitoid ürotelyal karsinom (PUK) oldukça nadir görülen bir ürotelyal karsinom varyantıdır[5]. Plazmasitoid komponent genellikle konvansiyonel ürotelyal karsinom ile birlikte sistektomi spesmenlerinde görülür, ama plazmasitoid ürotelyal karsinom saf veya ağırlıklı olarak küçük biyopsilerde de görülebilir. Özellikle ilgi çekici olarak metastatik alanlarda plazmasitoid görünüm multipl myeloma veya malign lenfoma açısından hatalı tanıya yol açabilir[5].

Hastaların klinik başvuru şekilleri genellikle hematüri şeklindedir. Hastalar çoğunlukla orta ileri yaş grubunda(46-89) erkeklerdir. Mevcut veriler PUK' un genellikle yüksek grade agresif tümör olduğunu, sıklıkla tanı anında ileri evrede saptandığını ve tedaviye zayıf yanıt verdiği belirlenmiştir[2,3]. Yakın zamanlı yayınlanan çalışmalarda, radikal sistektomi yapılan PUK tanılı hastaların patolojik incelemesinde intraperitoneal yayılım, lenf nodu pozitifliği, serozal yüzey ve fasyal tutulumunun çok daha fazla olduğu ve cerrahi sonrası nükslerin genellikle intraperitoneal olduğu saptanmıştır[2,4]. Bu vakaların patolojik tanısında immünhistokimyasal değerlendirmenin yapılması büyük önem taşımaktadır. Atipik neoplastik hücrelerin EMA ve AE1/AE3, CK7, CK20, CD138 pozitifliği PUK tanısında yardımcı olmaktadır[6]. E-cadherin ekspresyon kaybının muhtemelen ürotelyal karsinomun plazmasitoid diferansiyasyonu ve hücre invazyonuyla ilişkili olduğu düşünülmektedir. Mitsogiannis et al. [8] çalışmasında mesanede CD138 pozitifliğinin plazmasitoid tümör hücreleriyle ilgili olduğu görülmüş. Bundan dolayı PUK için CD138 pozitifliği tanıyı desteklemektedir. Bizim vakamızda da AE1/AE3, EMA, CD138 pozitifliği saptandı.

PUK nadir görülen bir hastalık olduğundan tedavide klinik yönetim halen tartışmalıdır. Hastaların çoğunluğunda tanı konduğunda ileri aşamada olmaları ve bu varyantın yüksek metastatik potansiyeli bulunması nedeniyle agresif bir tedavi yöntemi izlemek gerekmektedir. Bugüne kadar radikal sistektomi ilk seçe-

nek olmuştur. Neoadjuvan ve adjuvan tedavi süreci de PUK' nin sistemik ilerleme riskini azaltmak için dikkate alınmalıdır. Lenfovasküler veya lenf nodu tutulumu ve invaziv tümörü olan hastalar MVAC (Metotreksat, Vinblastin, Doksorubisin, Sisplatin) veya Gemsitabin-Sisplatin kemoterapi içeren adjuvan kemoterapi kombinasyonu, bir ılımlı yarar göstermiştir[4]. Kohno et al.[7] çalışmasında kemoterapide 2 kür MVAC ile tedavide tam yanıt alınan bir olgu bildirilmiştir. Dayyani ve ark.'nın[4] çalışmasında ise neoadjuvan kemoterapinin genel sağkalıma katkısının olmadığını saptamışlardır. Son yayınlanan veriler ile PUK tanılı hastalarda prognozun kötü olduğunu gösterilmektedir. Bazı büyük serilerde genel sağkalım oranı 17,7 ay olarak saptanmıştır[4]. Bizim olgumuzda, BT' de LAP pozitifliği, prostatın lokal invaziv görünümü olması nedeniyle radikal sistoprostektomi düşünülmüş olup hastaya sistemik kemoterapide gemsitabin ve sisplatin uygulandı. Hastanın takip ve tedavisi halen medikal onkoloji kliniğinde devam etmektedir.

Sonuç

PUK ürotelyal karsinomun nadir görülen ve oldukça agresif seyreden varyantıdır. Tanı için tipik histolojik görünümün haricinde immünohistokimyasal değerlendirme gerekmektedir. Tedavide radikal sistektominin invaziv, metastatik olmayan ürotelyal karsinomlar için ilk basamak tedavi olmasına rağmen, kemoterapinin bu nadir ürotelyal karsinom için etkili olduğunu bilmek önemlidir. Plazmasitoid tip ürotelyal karsinomun tedavi stratejisini belirlemek için daha çok çalışmaya ihtiyaç duyulmaktadır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Olsen DL, Anderson SR. Metastatic plasmacytoid urothelial carcinoma: a case report and review of the literature. *Acta Cytol* 2014;58(1):108-12.
2. Ricardo-Gonzalez RR, Nguyen M, Gokden N, Sangoi AR, Presti Jr. JC, McKenney JK. Plasmacytoid carcinoma of the bladder: a urothelial carcinoma variant with a predilection for intraperitoneal spread. *J Urol* 2012;187(3):852-5.
3. Fritsche HM, Burger M, Denzinger S, Legal W, Goebell PJ, Hartmann A. Plasmacytoid urothelial carcinoma of the bladder: histological and clinical features of 5 case. *J Urol* 2008;180(5):1923-7.
4. Dayyani F, Czerniak BA, Sircar K, Munsell MF, Millikan RE, Dinney CP, et al. Plasmacytoid urothelial carcinoma, a chemosensitive cancer with poor prognosis, and peritoneal carcinomatosis. *J Urol* 2013;189(5):1656-61.
5. Sahin AA, Myhre M, Ro JY, Sneige N, Dekmezian RH, Ayala AG. Plasmacytoid transitional cell carcinoma. Report of a case with initial presentation mimicking multiple myeloma. *Acta Cytol* 1991;35(3):277-80.
6. Mai KT, Park PC, Yazdi HM, Saltel E, Erdogan S, Stinson WA, et al. Plasmacytoid urothelial carcinoma of the urinary bladder report of seven newcases. *Eur Urol* 2006;50(5):1111-4.
7. Kohno T, Kitamura M, Akai H, Takaha M, Kawahara K, Oka T. Plasmacytoid urothelial carcinoma of the bladder. *Int J Urol* 2006;13(4):485-6.
8. Mitsogiannis IC, Ioannou MG, Sinani CD, Melekos MD. Plasmacytoid transitional cell carcinoma of the urinary bladder. *Urology* 2005;66(1):194.

How to cite this article:

Karabakan M, Akdemir S, Akdemir AÖ, Güzel Ö, Çolak A. A Rare Case Report: Plasmacytoid Urothelial Carcinoma of the Urinary Bladder. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 539-41.



Foreign Body in the Liver: Sewing Needle

Karaciğerde Yabancı Cisim: Dikiş İğnesi

Karaciğerde Yabancı Cisim / Foreign Body in the Liver

Yeliz Aktürk¹, Okan Murat Aktürk², Serra Özbal Güneş¹, Baki Hekimoğlu¹

¹Dışkapı Yıldırım Beyazıt Eğitim Araştırma Hastanesi, Radyoloji Kliniği,

²Ankara Numune Eğitim Araştırma Hastanesi, Genel Cerrahi Kliniği, Ankara, Türkiye

34. Ulusal Radyoloji Kongresi'nde, 6-10 Kasım 2013 tarihinde Antalya'da: PS-0364 (Ref.0790) numaralı poster sunum olarak kabul edilmiştir.

Özet

Yabancı cisim yutulması sık görülen bir klinik sorundur. Çoğu yabancı cisim gastrointestinal sistemi zarar vermeden boylu boyunca geçer. Delici ve penetratif yabancı cisimler mide ve ince barsak anslarını perforate ederek komşu organları etkileyebilir. Ancak bu nadir bir durumdur. Gastrointestinal sistem dışında yer alan yabancı cisimlerin lokalizasyonunun ve komşu organlarla ilişkisinin değerlendirilmesinde bilgisayarlı tomografi oldukça yardımcıdır. Bu yazıda; yutulan bir dikiş iğnesinin duodenumu perforate ederek karaciğere penetre olduğu bir olguyu sunmayı amaçladık.

Anahtar Kelimeler

Yabancı Cisim; Penetrasyon; Perforasyon

Abstract

Foreign body ingestion is a frequent clinical problem. Many foreign bodies go through the alimentary system without causing any damage. Incisory and penetrative foreign bodies may migrate and stay in the neighboring organs after perforation. Nevertheless this is an unusual case. The foreign bodies may be found outside of the gastrointestinal system and computed tomography is helpful for localization and to identify their relationship between surrounding tissues. Here we report of a case in which a swallowed needle perforates duodenum and penetrates the liver.

Keywords

Foreign Body; Penetration; Perforation

DOI: 10.4328/JCAM.2629

Received: 19.06.2014 Accepted: 08.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 542-4

Corresponding Author: Yeliz Aktürk, Dışkapı Yıldırım Beyazıt Eğitim Araştırma Hastanesi, Radyoloji Kliniği, İrfan Baştuğ Caddesi, Dışkapı, 06120, Ankara, Türkiye.
T.: +90 3122596200 GSM: +905363515536 E-Mail: yelizakturk@yahoo.com

Introduction

Foreign bodies are rare in the liver parenchyma [1]. The frequency of occurrence was fish bone (33%), toothpick (27.3%), chicken bone (12.5%), and needle (9.1%) [2]. The penetration of foreign bodies through the wall of duodenum and stomach and their penetration to liver after swallowing is a rare occurrence [1,3-5]. As in our case, swallowed foreign bodies, the foreign bodies may be found outside of the gastrointestinal system and computed tomography (CT) may be helpfull for localization and to identify their relationship between surrounding tissues.

Case Report

43-year old male patient attended to emergency department having swallowed a needle. His medical history revealed schizophrenia. His physical examination and laboratory findings were normal. Plain abdominal X rays showed lineer opacity resembling a needle (figure 1). In the abdominal CT ; a 5-centimetre-long needle like lineer metallic density was observed in the left liver lobe (figure 2,3). The patient was followed conservatively .



Figure 1. Plain abdominal X ray shows a lineer opacity resembling a needle in the left upper quadrant. There is also opasities on the left kidney region of staghorn stone.

Discussion

Foreign body ingestion is a frequent clinical problem. The cases are patients with psychiatric disorders, children and rarely healty adults [6]. Our patient had been diagnosed with schizophrenia. Many foreign bodies pass through the gastrointestinal system all along without any harm [1,3-5]. Incisory and penetrative foreign bodies may reside in neighbouring organs after perforating stomach or the small bowels .However, this is very a rare ocurrence [3,5,6]. Gastrointestinal perforation has been reported in less than 1% of patients and the most commonly affected areas are the ileocecal and rectosigmoidal regions and duodenum [5]. Hepatic foreign bodies are rare, and may enter the liver by migration from the gastrointestinal tract, direct penetration



Figure 2. Axial image of the abdominal CT demonstrates a metallic density in the left liver lobe



Figure 3. Coronal reformat image of the 5 mm slice thickness abdominal CT demonstrates 5 cm needle like lineer metallic density in the left liver lobe

through the abdominal wall, or via the bloodstream. There are a few cases that a foreign body is found in the liver after perforating duodenum and stomach [1,3]. It is likely that the present case also had a silent perforation, thus the foreign body was in the left lobe of the liver. It may be necessary to diagnose and treat immediately to prevent mortality and morbidity [3,4]. Most patients have non specific symptoms such as abdominal pain, fever, vomiting, anorexia or weight loss which are features of a systemic response against an infection or abscess formation. Hepatic abscess with fever, abdominal pain and jaundice are only present in a few cases. The results of routine laboratory studies are also non-specific [5]. Laboratory findings and physical examination were normal in our patient. Foreign body is visualized as an opacity in radiograms. However they fail to identify exact location. Ultrasonography is safe and repeatible. Foreign bodies may be detected as hyperechoic structures in various shapes [6]. But patient dependent factors such as gas artifact and obesity and the small size of the foreign body may limit the utilisation of sonography. Endoscopy

may be helpful if performed in early stages before foreign body penetrates the mucosa and the mucosa heals after that. Ultrasonography and CT may help to detect unusual localizations and to plan the treatment. CT reveals excellent results because of high resolution [3,5].

In our case CT findings show that the needle has migrated to liver after perforating duodenum. Consequently CT is very helpful to identify the location of foreign bodies swallowed and to detect complications such as perforation, hematomas or infections.

Observation is the preferred treatment without surgery in case of a foreign body in the liver which does not cause any complications. Foreign bodies which lead to complications may be removed with laparotomy or laparoscopy. Any abscess must be drained [1,3].

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Crankson SJ. Hepatic foreign body in a child. *Pediatr Surg Int* 1997;12(5-6):426–7.
2. Chong LW, Sun CK, Wu CC, Sun CK. Successful treatment of liver abscess secondary to foreign body penetration of the alimentary tract: a case report and literature review. *World J Gastroenterol* 2014;20(13):3703–11.
3. Bulakçı M, Agayev A, Yanar F, Sharifov R, Taviloğlu K, Uçar A. Final destination of an ingested needle: the liver. *Diagn Interv Radiol* 2011;17(1):64–6.
4. Lee KF, Chu W, Wong SW, Lai PB. Hepatic abscess secondary to foreign body perforation of the stomach. *Asian J Surg* 2005;28(4):297–300.
5. Santos SA, Alberto SCF, Cruz E, Pires E, Figueira T, Coimbra E, et al. Hepatic abscess induced by foreign body: case report and literature review. *World J Gastroenterol* 2007;13(9):1466–70.
6. Spina P, Minniti S, Bragheri R. Usefulness of ultrasonography in gastric foreign body retention. *Pediatr Radiol* 2000;30(12):840–1.

How to cite this article:

Aktürk Y, Aktürk OM, Güneş SÖ, Hekimoğlu B. Foreign Body in the Liver: Sewing Needle. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 542–4.



Association of Hepatic Hydatid Cyst Disease and Liver Tuberculosis

Karaciğer Kist Hidatik Hastalığı ve Karaciğer Tüberkülozu Birlikteliği

Karaciğer Kist Hidatik Hastalığı ve Tüberküloz / Hepatic Hydatid Cyst Disease and Tuberculosis

Songül Özyurt¹, Halit Çınarka¹, Mevlüt Karataş¹, Recep Bedir², Ünal Şahin¹

¹Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı, ²Patoloji Anabilim Dalı, Recep Tayyip Erdoğan Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Rize, Türkiye

Özet

Kist hidatik ve tüberküloz ülkemizde sık görülen enfeksiyon hastalıklarıdır. Bu iki hastalığın birlikteliği ise oldukça nadir bir durum olup burada eş zamanlı olarak karaciğerde kist hidatik hastalığı ve tüberküloz lezyonu saptanan bir olguyu sunuyoruz. Karaciğer tüberkülozu miliyer tüberkülozun bir komponenti olarak veya izole karaciğer tüberkülozu olarak görülebilir. Burada sunduğumuz olgu, kırkaltı yaşında bir erkek hasta olup on günden beri nefes almakla ve hareketle artan şiddetli sağ yan ağrısı nedeniyle acil servise başvurdu. Batın ultrasonografisinde karaciğer sağ lob anteriorda 151x144x128 mm boyutlarında kist hidatik ile uyumlu lezyon saptandı. Ekinokok indirekt hemaglutinasyon testi 1/640 pozitif olarak saptandı. Hastaya genel cerrahi kliniği tarafından karaciğer kistektomi operasyonu uygulandı. Eksizyon materyalinin mikroskopik olarak incelenmesinde kist hidatik ve kistin karaciğere yerleştiği parankim alanı içinde kazeifikasyon nekrozu içeren kronik granülomatoz enflamasyon saptandı. PPD testi 16 mm olarak ölçüldü. Akciğerleri normal olarak değerlendirilen hastaya primer karaciğer tüberkülozu nedeniyle antitüberküloz tedavi uygulandı.

Anahtar Kelimeler

Echinococcus Granulosus; Kist Hidatik; Tüberküloz

Abstract

Hydatid cyst and tuberculosis are common infectious diseases in our country. However, co-incidence of these two diseases is a rare case. This refers to spontaneous emergence of cyst hydatid and tuberculosis lesion in liver which is presented in this paper. Liver tuberculosis can be detected either as a component of miliary tuberculosis or isolated liver tuberculosis. Herein we report a case of 46 year-old male. He applied to the emergency due to the severe right-side pain which coupled with breathing and movement. This was reported to last for 10 days. Lesion compatible to cyst hydatid with a size of 151 x 144 x 128 mm was detected in the right lobe anterior in his abdomen ultrasonography. Echinococcus indirect hemagglutination test resulted in 1/640 positive. The patient had liver cystectomy by general surgery clinic. After microscopic examination of excision material, chronic granulomatous inflammation with caseous necrosis was detected in parenchyma to which cyst hydatid and lesion were attached. PPD result was 16 mm. The patient, whose lungs were normal, received antituberculosis treatment due to primary liver tuberculosis.

Keywords

Echinococcus Granulosus; Hydatid Cyst; Tuberculosis

DOI: 10.4328/JCAM.2630

Received: 19.06.2014 Accepted: 09.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 545-7

Corresponding Author: Halit Çınarka, Recep Tayyip Erdoğan Üniversitesi, Tıp Fakültesi Göğüs Hastalıkları Anabilim Dalı, 53200 Rize, Türkiye.

T.: +90 4642123009 F.: +90 4642123015 E-Mail: halitcinarka@hotmail.com

Giriş

Hidatik kist hastalığı tarım ve hayvancılıkla uğraşan, çevre sağlığı ve koruyucu hekimlik önlemlerinin yetersiz kaldığı tüm toplumlarda görülen önemli bir paraziter hastalıktır [1]. En sık tutulan organ karaciğerdir [2]. Tüberküloz ise tüm dünyada ve ülkemizde önemli bir sağlık sorunu olmaya devam etmektedir. En fazla akciğer tutulumu görülür. Ekstrapulmoner tutulum tüberküloz olgularının yaklaşık %17.9'unu oluşturur. Abdominal tüberküloz ise tüberküloz ekstrapulmoner tüberküloz olgularının %4.2'si kadardır [3,4]. Karaciğer tüberkülozu genellikle miliyer tüberkülozla birlikte görülür, fokal karaciğer tüberkülozu nadirdir [3]. Ülkemizde her iki hastalık oldukça sık görülmesine rağmen birliktelik nadirdir. Literatürde karaciğer kist hidatik hastalığı ve karaciğer tüberküloz birlikteliği nadir bildirilmiştir. Bizde nadir görülen bu birlikteliği literatür eşliğinde sunmaya çalıştık.

Olgu Sunumu

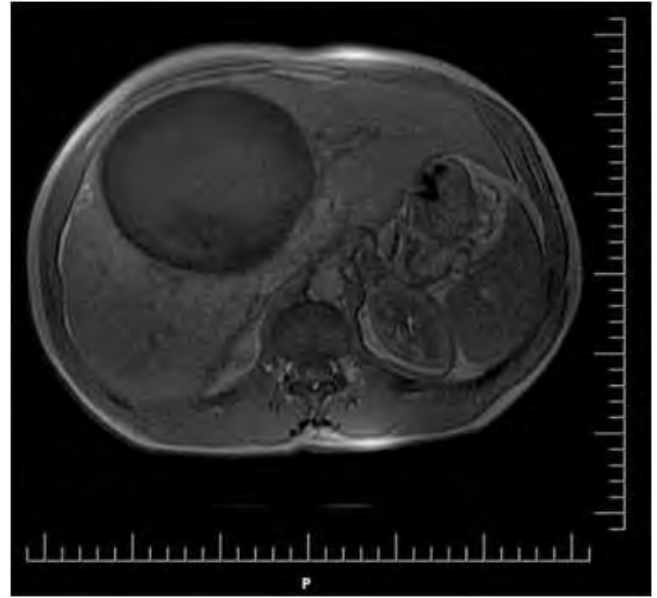
Kırkaltı yaşında, erkek hasta, inşaat işçisi, karın ağrısı yakınması ile acil servise başvurdu. Anamnezinde karın ağrısı iki yıldan beri devam ediyordu, bazen epigastrik bölgede bazen de sağ yan ağrısı şeklindeydi. Mükerrer acil servis başvurularında peptik ülser veya renal kolik tanısı ile tedavi edildiğini belirtiyordu. Son on günden beri hastanın sağ üst kadranda lokalize zaman içinde şiddetlenen karın ağrısı, nefes almakla ve hareketle artıyordu. İştahsızlık şikayeti vardı ve son bir yılda yaklaşık beş kilo zayıflamıştı. İki yıldır gece terlemesi ve bazen ateş yakınması mevcuttu. Fizik muayenesinde sağ üst kadranda palpasyonla hassasiyet dışında patolojik bulgu yoktu. Tansiyon arteriyel: 120/70 mmHg, nabız: 74/dk, ateş: 36.7 OC saptandı. Laboratuvar bulgularında lökosit: 9.570uL (4-10) olup %28.5 eozinofil (% 0.5-5) idi. Eritrosit sedimentasyon hızı 28 mm/h, C-reaktif protein: 1.5mg/dL (0-5mg/dL) saptanmıştı. Kan Biyokimyasında alkalen fosfataz (ALP): 331 U/L (30-120), Gama glutamil transferaz (GGT): 109 U/L (0-49), diğer değerleri normaldi. Özgeçmişinde 120 paket/yıl sigara içme öyküsü vardı.

Hastanın akciğer grafisinde bilgisayarlı toraks tomografisinde ve direkt batin grafisinde patoloji saptanmadı. Karın ağrısı nedeniyle çekilen acil batin ultrasonografisinde karaciğer sağ lob anteriorda 151x144x128 milimetre boyutlarında kistik lezyon saptandı. Dinamik karaciğer Manyetik Rezonans tetkikinde sağ lob anterior segmenti tamamen dolduran, yaklaşık 150x150 mm boyutlarında, kontrastlı serilerde kontrastlanmayan, belirgin bir solid komponenti izlenmeyen kistik görünüm saptandı (figür 1). Mevcut radyolojik bulgular kist hidatik ile uyumlu bulunarak kanda ekinokok indirekt hemaglutinasyon testi istendi. Sonuç 1/640 (pozitif) saptandı.

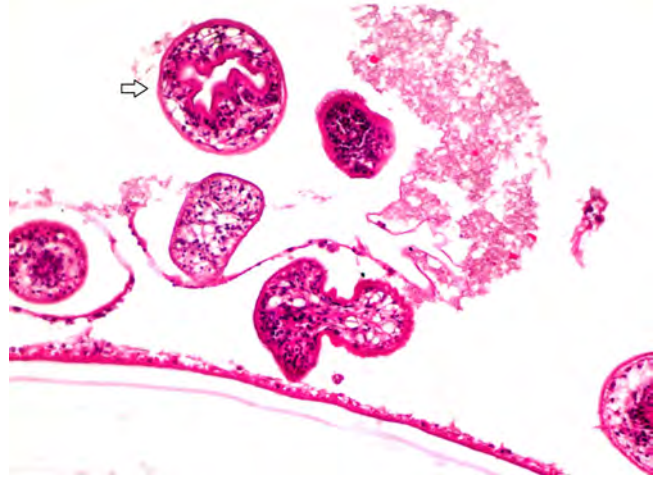
Hastaya genel cerrahi kliniği tarafından genel anestezi altında kistektomi operasyonu uygulandı. Makroskopik olarak 1.5x10x2.5 santimetre ölçüde sedefli beyaz renkte kistik yapı ve aynı kap içerisinde gönderilen 8.5x5.6x0.4 santimetre düzensiz kist duvarına ait eksizyon materyalinin mikroskopik olarak incelenmesinde kist hidatik (figür 2) ve karaciğer parankimi içinde kazeifiye nekrotizan granülomatoz inflamasyon saptandı (figür 3).

Tartışma

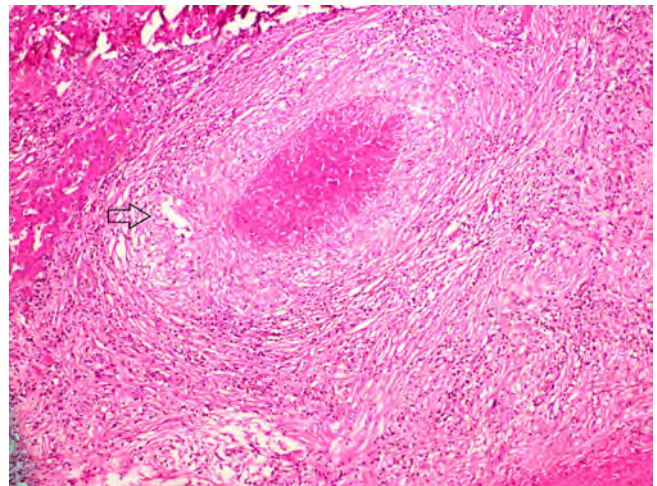
Echinococcus granulosus tarafından meydana getirilen kist hidatik hastalığı yaygın görülen bir zoonozdur [1]. Birçok organı



Figür 1. Dinamik karaciğer Manyetik Rezonans tetkikinde sağ lob anterior segmenti tamamen dolduran, yaklaşık 150x150 mm boyutlarında, kontrastlı serilerde kontrastlanmayan, belirgin bir solid komponenti izlenmeyen kistik görünüm.



Figür 2. Kist hidatiğin kütiküler membranı ve skoleks yapıları (Ok işareti) (H&EX200)



Figür 3. Karaciğer parankimi içinde kist hidatiğin fibröz kapsülünde kazeifikasyon nekrozu olan granülomatoz inflamasyon (Ok işareti) (H&Ex200)

etkilemekle birlikte en sık tutulan organ karaciğerdir [2]. Kist hidatik ve tüberküloz ülkemizde sık görülmesine rağmen nadiren birlikte olan iki hastalıktır. Literatür taramasında karaciğer kist

hidatik ve tüberküloz birlikteliği nadir bildirilmiştir [5]. Hem paraziter hastalıklar hem de tüberküloz gelişmekte olan ülkelerde hala önemli bir sağlık sorunu olmaya devam etmektedir. Yapılan araştırmalarda paraziter hastalıklar için endemik olan alanlar aynı zamanda tüberkülozun sık görüldüğü yerler olmasından dolayı bu iki hastalığın birlikte görülme oranını arttırmaktadır [5,6]. Dünya Sağlık Örgütü (DSÖ) raporlarına göre, dünya nüfusunun yaklaşık üçte biri tüberküloz mikrobiyotik ile enfektir. 2012 yılında 8,6 milyon yeni vaka ve 1,3 milyon tüberkülozdan ölüm olduğu hesaplanmıştır [6].

En sık Pulmoner tutulum görülür. Extrapulmoner tutulum tüberküloz olgularının yaklaşık %17.9'unu oluşturur. Abdominal tüberküloz ise extrapulmoner tüberküloz olgularının % 4.2'si kadardır [3,4]. Karaciğer tüberkülozu genellikle miliyer tüberkülozun bir komponenti olarak görülür, fokal karaciğer tüberkülozu nadirdir [3]. Lokal hepatik tüberküloz hepatik apse veya tüberkülomlar şeklinde görülebilen fokal veya nodüler form ile intrahepatik kistler tutan tübüler formdan oluşur [7,8]. Parazitik enfeksiyonların birtakım immunolojik mekanizmalar aracılığıyla tüberküloz yatkınlığını arttırdığı saptanmıştır [6]. Ayrıca literatür taramasındaki olgu sunumlarından elde edilen verilere göre yaklaşık on yedi çeşit parazitin tüberküloz ile birliktelik gösterdiği saptanmıştır ve bunlardan tüberküloz ile en sık birliktelik gösterenler leishmaniasis, kist hidatik ve malarya olarak bildirilmiştir [5,6]. Bu birliktelik tek parazitte olabileceği gibi birden fazla parazitte de olabilmektedir [5]. Tüberküloz ve parazitik hastalıkların birlikte görülmesini etkileyen üç önemli faktör olduğu saptanmıştır. Bunlardan birincisi yaş, cinsiyet gibi sosyo-demografik özellikler, ikincisi renal transplant hastaları, diyaliz hastaları, HIV pozitif hastalar ve göçmenler, üçüncüsü ise Hindistan ve Doğu Afrika gibi ko-enfeksiyon ihtimalinin yüksek olduğu bölgelerde yaşamaktır [5,6]. Hastamız inşaat işçisi olup kötü yaşam koşulları dışında anamnezinde ek hastalık ve endemik bölgeye seyahat öyküsü yoktu.

Kist hidatik hastalığında insan ara konaktır ve bulaşma sıklıkla infekte köpeklerden fekal-oral kontaminasyonla, kirlenmiş gıda ve su yoluyla olmaktadır. En sık yerleşim yeri karaciğerdir (%60-70). Karaciğerde tutunamayan embriyolar akciğerlere (%20-25) geçer, ardından sistemik dolaşıma katılarak kemik dahil tüm organ ve dokulara yerleşebilir [1]. Çoğu enfeksiyon tek kistten oluşur, % 20-40 vakada multiple kistler gelişir. Olgumuzda karaciğerde tek kist mevcuttu. Kist hidatik hastalığında belirti ve bulgular tutulan organa ve kistin büyüklüğüne göre değişiklik gösterir. Hastalar kistin yavaş büyümesine bağlı olarak genellikle asemptomatiktir. Hepatomegali, sağ yan ve epigastrik ağrı, bulantı, kusma, iştahsızlık gibi belirtiler olabilir [1,8]. Kistte rüptür gelişir ise anafaksi bulguları ortaya çıkar [8]. Karaciğer tüberkülozunda ise en sık görülen semptom abdominal ağrıdır. Ayrıca hastalarda ateş, terleme, kilo kaybı gibi yakınmalar bulunabilmektedir [1]. Olgumuzda yaklaşık 2 yıldan beri sağ yan ve epigastrik bölgede ortaya çıkan karın ağrısı, şişkinlik hissi mevcuttu. 2 yıldan beri gece terlemesi ve 5 kilogram zayıflama, son 10 günden beri ise nefes almakla ve hareketle artan sağ yan ağrısı vardı.

Kist hidatikte fizik muayene bulguları tanı için nadiren yardımcıdır, hepatomegali ve palpasyonla sağ üst kadranda hassasiyeti saptanabilir [8]. Hastamızda sağ üst kadranda palpasyonla hassasiyet dışında fizik muayene bulguları normaldi. Tanı için rutin

laboratuvar incelemelerinin fazla önemi yoktur. Kanda eozinofili hastaların %25'inde görülebilir ve tanı için özgül değildir [1]. Hastamızda periferik kanda %28.5 eozinofili saptandı. Serolojik tanıda IgG ELİSA ve İndirekt Hemaglutinasyon (İHA) testleri kullanılır ve 1/160 üzeri (+) kabul edilir [1,8]. Hastamızda ecinococ İHA 1/640 (+) saptandı. Aynı şekilde karaciğer tüberkülozunda da belirgin fizik muayene bulgusu ve laboratuvar bulgusu yoktur. Karaciğer enzimlerinde ve ALP düzeyinde artış saptanabilir [6]. Olgumuzda ALP düzeyi yüksek saptandı (331 U/L). Kist hidatik hastalığının tanısı görüntüleme, serolojik ve immunolojik yöntemlerin kombinasyonu ile konulur [1,8]. Abdominal USG kistin boyutunu, lokalizasyonunu ve sayısını saptamak için altın standart, non-invaziv tanı testidir [8]. Bununla birlikte USG her zaman kist, abse ve tümörün ayırıcı tanısında yeterli olmayabilir. MR ve CT gibi ek tanısal görüntüleme yöntemleri gerekli olabilir. MR sıvı komponentini daha iyi gösterdiği ve cerrahi tedavi öncesinde değerlendirmede daha önemli olduğu için CT'ye tercih edilir [8]. Hastamızda yapılan batın USG' de karaciğer sağ lob anteriorunda 151x144x128 mm boyutlarında kistik lezyon mevcuttu. Dinamik karaciğer MR tetkikinde sağ lob anterior segmenti tamamen dolduran yaklaşık 150x150 mm boyutlarında, kontrastlıserilerde kontrastlanmayan, belirgin bir solid komponenti izlenmeyen kistik görünüm saptandı.

Kist hidatik tedavisinde kemoterapi, cerrahi ve perkütan tedavi olmak üzere üç çeşit tedavi yöntemi uygulanmaktadır [2,8]. Bu yöntemlerden küratif olanı cerrahi rezeksiyondur [1,8]. Tek ve büyük çaplı kistlerde rüptür ve anafaksiriski yüksek olması nedeniyle genellikle uygulanan yöntem cerrahidir [2,8]. Cerrahi metodlar total ya da subtotal kist-perikistektomi, parsiyel hepatektomi, kapitonaj, omentoplasti gibi yöntemlerdir [8]. Olgumuza genel anestezi altında kistektomi operasyonu uygulanmış olup eksizyon materyalinin patolojik tetkikinde kist hidatik ve kazeifikasyon nekrozu içeren granülatöz inflamasyon saptanmıştır. Olgumuzda Kist hidatik bulguları ön planda olup, tüberkülozun varlığı patolojik incelemelerde saptandı. Ko-endemik alanlar dışında bu iki hastalığın karaciğeri birlikte etkilemesi nadir bir durumdur.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Köksal AŞ, Arhan M, Oğuz D. Kist hidatik. Güncel Gastroenteroloji 2004;8(1):61-7.
2. Agarwal S, Sikora SS, Kumar A, Saxena R, Kapoor VK. Bile leaks following surgery for hepatic hydatid disease. Indian J Gastroenterol 2005;24(2):55-8.
3. Nak SG. Karaciğer tüberkülozu. In: Özyardımcı N, editor. Akciğer ve akciğer dışı organ tüberkülozları. Bursa: Uludağ Üniversitesi Basımevi; 1999. P. 293-306.
4. Alvarez SZ. Hepatobiliary tuberculosis. J Gastroenterol Hepatol 1998;13(8):833-9.
5. Li XX, Zhou XN. Co-infection of tuberculosis and parasitic diseases in humans: a systematic review. Parasit Vectors 2013;6:79.
6. Yang YR, Gray DJ, Ellis MK, Yang SK, Craig PS, McManus DP. Human cases of simultaneous echinococcosis and tuberculosis - significance and extent in China. Parasit Vectors 2009;2(1):53.
7. Leader SA. Tuberculosis of the liver and gall-bladder with abscess formation: a review and case report. Ann Intern Med 1952;37(3):594-606.
8. Nunnari G, Pinzone MR, Gruttadauria S, Celesia BM, Madeddu G, Malaguarnera G, et al. Hepatic echinococcosis: clinical and therapeutic aspects. World J Gastroenterol 2012;18(13):1448-58.

How to cite this article:

Özyurt S, Çınar H, Karataş M, Bedir R, Şahin Ü. Association of Hepatic Hydatid Cyst Disease and Liver Tuberculosis. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 545-7.



Low-Dose of Ziprasidone Induced Acute Dystonia: A Case Report

Düşük Doz Ziprasidona Bağlı Akut Distoni; Olgu Sunumu

Ziprasidona Bağlı Akut Distoni / Ziprasidone induced Acute Dystonia

Kadir Demirci¹, Seden Demirci², Mesut Yıldız³

¹Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi Psikiyatri Anabilim Dalı, Isparta,

²Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi Nöroloji Anabilim Dalı, Isparta,

³Gaziosmanpaşa Üniversitesi Tıp Fakültesi Psikiyatri Anabilim Dalı, Tokat, Türkiye

01-05 Mayıs 2013 tarihlerinde Antalya, Türkiye’de yapılan 10. Ulusal Parkinson ve Hareket Bozuklukları Kongresi’nde poster bildirisi şeklinde sunulmuştur.

Özet

Antipsikotik ilaçlar sıklıkla istenilmeyen ekstrapiramidal yan etkilere neden olmaktadır. Bu yan etkilere örnek olarak akut distoni, antipsikotik başlanması veya dozunun artırılmasından ya da akut ekstrapiramidal yan etkileri tedavi etme amacıyla kullanılan antikolinergik ilaçların dozunun azaltılmasından sonra birkaç gün içinde gelişen anormal postür ve kas krampları olarak tanımlanır. Akut distoni sıklıkla tipik antipsikotiklere bağlı gelişir. Atipik bir antipsikotik olan ziprasidonun tipiklerden daha az ekstrapiramidal yan etkiye neden olduğu bilinir. Bu yazıda, ziprasidonun ikinci düşük dozu sonrası akut distoni tablosu gelişen olgu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Ziprasidon; Akut Distoni

Abstract

Antipsychotics medication frequently leads to different undesirable extrapyramidal side effects. Acute dystonia is one of them. It is defined as sustained abnormal postures or muscle spasms that develop within few days of starting or increasing the dose of the antipsychotic treatment or of reducing the anticholinergic medication used to treat extrapyramidal symptoms. Usually acute dystonia appears during treatment with typical antipsychotics. It is known that ziprasidone as an atypical antipsychotic drug causes less extrapyramidal side effects than typical ones do. In this report, we present a case, which developed acute dystonia after second low dose of ziprasidone (40mg/day).

Keywords

Ziprasidone; Acute Dystonia

DOI: 10.4328/JCAM.2640

Received: 26.06.2014

Accepted: 13.07.2014

Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 548-9

Corresponding Author: Kadir Demirci, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi Psikiyatri Anabilim Dalı, Isparta, Türkiye.

T.: +90 2462119336 F.: +90 2462112830 E-Mail: kdrdmrc@yahoo.com, kadirdemirci@sdu.edu.tr

Giriş

Antipsikotik ilaçların neden olduğu akut distoni, antipsikotik başlanmasıyla, dozunun artırılmasından veya akut ekstrapiramidal yan etkileri tedavi etme amacıyla kullanılan antikolinerjik ilaçların dozunun azaltılmasından sonra, birkaç gün içinde gelişen, göz, baş, boyun, kol, bacak ya da gövde kaslarının olağandışı ve uzun süreli kasılmasıdır [1]. Ani başlayan, ağrıyla seyreden, dramatik tablolardır. Olguların büyük kısmı antipsikotik başlanmasını ya da doz artırılmasını takip eden ilk 3 günde, bunların da çoğu ilk 24-48 saatte ortaya çıkmaktadır. Akut distoni acil bir durum olup, solunum güçlüğü, asfiksi, disfaji, boğulma şeklinde yaşamsal fonksiyonları bozabildiğinden tanınması ve tedavisi önemli kabul edilmektedir [2].

Ziprasidon serotonin reseptörlerine (5-HT_{2A}) dopamin reseptörlerine (D₂) gösterdiğinden daha fazla afinite gösteren, 5-HT_{1A} agonist etkisi de bulunan yeni nesil bir antipsikotiktir [3]. Şizofreni, şizoafektif bozukluk ve diğer psikotik bozukluklarda ve bipolar bozukluğun mani döneminde kullanılmaktadır. Ayrıca dirençli obsesif kompulsif bozukluk (OKB) olgularının kombine tedavisinde de etkili olduğu bildirilmiştir [4]. Bu yazıda OKB'li bir hastada atipik antipsikotik olan ziprasidon tedavisinin 2. dozu ile gelişen akut distoni olgusu tartışılmıştır.

Olgu Sunumu

27 yaşında bayan hasta, obsesif kompulsif bozukluk (OKB) tanısı ile 6 aylır ilçe hastanesinde 20 mg/gün fluoksetin tedavisi ile izlenmekte iken, 15 gündür mistik düşünce obsesyonları ve şüphe obsesyonlarında artış olması üzerine tedaviye eklenen ziprasidon 40 mg/gün tedavisinin 2. dozundan sonra gelişen, daha çok sol kol ve boyun kaslarında istemsiz, ağrılı, aralıklı kasılması şikayeti ile acil servise başvurdu. Fizik ve nörolojik muayenede sol kol, boyun ve gövde kaslarını içeren segmental distoni saptandı. Laboratuvar incelemeleri ve kraniyal BT incelemesi normal olarak değerlendirilen hastada ziprasidona bağlı akut distoni tablosu düşünüldü. Biperiden 5 mg IM olarak uygulanan hastanın distoni tablosu 1 saat içinde geriledi. Ziprasidon tedavisi sonlandırılan ve biperiden 2 mg/gün dozunda oral tedavi düzenlenen hastanın 1 hafta sonra yapılan muayenesinde herhangi bir distonik reaksiyon olmaması üzerine biperiden tedavisi kesilip, fluoksetin dozu 40 mg/gün'e yükseltildi. Hastanın 3 aylık takiplerinde OKB belirtilerinde azalma tespit edildi ve distoni tablosu gözlenmedi.

Tartışma

Bu rapor atipik antipsikotik ziprasidonun düşük dozlarda bile nadir bir yan etkisi olan akut distoniye neden olabileceğini göstermiştir. Ziprasidon, serotonin reseptörlerine dopamin reseptörlerinden göreceli yüksek aktivite ile bağlanmaktadır. Bu nedenle ziprasidon tedavisi ile akut distoni ve ekstrapiramidal yan etkiler düşük oranda beklenmektedir. Antipsikotiklere bağlı gelişen distoni için risk faktörleri olarak genç yaş, erkek cinsiyet, kokain kullanımı, akut distoni öyküsünün varlığı belirlenmiştir [5]. Olgumuzda sadece genç yaş risk faktörü bulunmaktaydı. Literatürde ziprasidona bağlı akut distoni vakalarında ziprasidon dozunun 40-240 mg/gün aralığında olduğu görülmektedir [6-8]. Bizim olgumuzda 40 mg/gün dozunda ve tedavinin ikinci dozu ile distoni ortaya çıkması çok düşük dozlarda bile distoni oluşabileceğini göstermesi bakımından önemli bulunmuştur. Dew ve ark.

[8] 40 mg ziprasidon tedavisinin 3. dozu sonrası dilde tuhaf duyu ve dispne ile başlayan distoni olgusu bildirmişlerdir. Olgumuz 2. dozda ve üst ekstremitelerde ve boyun kaslarında distoni ile başvurmuştu. Bizim olgumuzda fluoksetin ile ziprasidonun CYP 3A4 enzim sistemi üzerinden farmakokinetik etkileşimi akla gelse de, fluoksetin tedavisinin uzun süredir kullanılıyor olması ve ziprasidon kesildikten sonra fluoksetin dozu arttırılmasına rağmen distoni gelişmemesi akut distoni tablosunun ziprasidona bağlı olabileceğini düşündürmüştür. Ayrıca ziprasidonun asıl olarak aldehid oksidaz yolağı ile metabolize oluşu da bu düşüncüyü destekler niteliktedir. Bizim olgumuzla benzer şekilde Yumru ve ark. [4] OKB'li bir hastada fluoksetine eklenen ziprasidonun başlangıç dozuyla distoni bildirmişler, ancak bu olguda fluoksetin dozunun 40 mg/gün, ziprasidon dozunun 80/mg gün oluşu bizim olgumuzdan farklı bulunmuştur. Sonuç olarak ziprasidon yeni nesil bir antipsikotik olmasına rağmen ekstrapiramidal yan etkiler ve distoni geliştirebileceği ve bu tablonun acil servislerde tanınmasının önemli olduğu unutulmamalıdır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Amerikan Psikiyatri Birliği. Ruhsal Bozuklukların Tanımsal ve Sayımsal El kitabı, Beşinci Baskı (DSM-5). Çev. Köroğlu E. Ankara: Hekimler Yayın Birliği; 2013. p. 357.
2. Annagür BB, Tamam L. Bilateral temporomandibular joint dislocation associated with use of anti-psychotic drug. Noropsikiyatr Ars 2010;47(4):351-3.
3. Schmidt AW, Lebel LA, Howard HR Jr, Zorn SH. Ziprasidone: a novel antipsychotic agent with a unique human receptor binding profile. Eur J Pharmacol 2001;425(3):197-201.
4. Yumru M, Savaş HA, Selek S, Savaş E. Acute dystonia after initial doses of ziprasidone: A case report. Prog Neuropsychopharmacol Biol Psychiatry 2006;30(4):745-7.
5. Van Harten PN, Hoek HW, Kahn RS. Acute dystonia induced by drug treatment. BMJ 1999;319(7210):623-6.
6. Praharaj SK, Jana AK, Sarkhel S, Sinha VK. Acute dystonia, akathisia, and parkinsonism induced by ziprasidone. Am J Ther 2014;21(2):38-40.
7. Rosenfield PJ, Girgis RR, Gil R. High-dose ziprasidone-induced acute dystonia. Prog Neuropsychopharmacol Biol Psychiatry 2007;31(2):546-7.
8. Dew RE, Hughes D. Acute dystonic reaction with moderate-dose ziprasidone. J Clin Psychopharmacol 2004;24(5):563-4.

How to cite this article:

Demirci K, Demirci S, Yıldız M. Low-Dose of Ziprasidone Induced Acute Dystonia: A Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 548-9.



Membranous Septal Aneurysm: An Unusual Case for Sub-Pulmonary Obstruction in cTGA

Membranöz Septal Anevrizma: cTGA'da Subpulmoner Obstrüksiyonun Nadir Bir Nedeni

cTGA Membranöz Septal Anevrizma Birlikteliği / cTGA with Membranous Septal Aneurysm

Onur Işık¹, Tolga Baş², Murat Koç², Hakan Aydın², Ali Kutsal²

¹Ege Üniv Kalp ve Damar Cerrahisi, İzmir,

²Dr Sami Ulus Kadın Doğum Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları EAH, Ankara, Türkiye

Özet

İnterventriküler septumun membranöz bölümünün anevrizması nadiren tanı alan bir konjenital kardiyak malformasyondur. Perimembranöz ventriküler septal defektler en sık defekt tipini oluştururlar ve morfolojik olarak membranöz septumda görülürler. Triküspit septal liflet komşuluğundaki membranöz septal anevrizmaların cerrahi eksplorasyonu, onarımı triküspit kapak fonksiyonu ve iletim dokusuna yakınlığı nedeniyle önem arz eder. Bu çalışmada konjenital olarak düzeltilmiş büyük arter transpozisyonlu hastada subpulmoner obstrüksiyona sebep olan membranöz septal anevrizmanın başarılı cerrahi tedavisini sunduk.

Anahtar Kelimeler

cTGA; Membranöz Septal Anevrizma; Pulmoner Stenoz

Abstract

Aneurysm of the membranous portion of the interventricular septum is an uncommon congenital cardiac malformation that is rarely diagnosed during life. Perimembranous ventricular septal defects are the most common type of the ventricular septal defects and originates from morphologically membranous interventricular septum. Surgical exposure and accurate closure of a ventricular septal defect with a membranous septal aneurysm beneath the tricuspid septal leaflet carries a risk of tricuspid valve insufficiency and conduction disturbances. The current study presents a case with membranous septal aneurysm with congenitally corrected transposition of the great arteries and sub-pulmonary obstruction, which was surgically corrected.

Keywords

cTGA; Membranous Septal Aneurysm; Pulmonary Stenosis

DOI: 10.4328/JCAM.2642

Received: 27.06.2014 Accepted: 14.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 550-2

Corresponding Author: Onur Işık, Ege Üniv Tıp Fakültesi Hastanesi Kalp ve Damar Cerrahisi Anabilimdalı, 35100, Bornova, İzmir, Türkiye.

GSM: +905065021305

Introduction

Aneurysm of the membranous portion of the interventricular septum is an uncommon congenital cardiac malformation, rarely diagnosed during life. Perimembranous ventricular septal defects are the most common type of the ventricular septal defects and originates from morphologically membranous interventricular septum. It has been known for several years that this variety of ventricular septal defect (VSD) is frequently associated with septal aneurysm formation. A membranous septal aneurysm (MSA) has been defined as an abnormality having the angiographic appearance of a pouch-like structure with distinct margins protruding around the edges of a VSD and bulging into the right ventricle during systole. Surgical exposure and accurate closure of a VSD with a membranous septal aneurysm beneath the tricuspid septal leaflet carries a risk of tricuspid valve insufficiency and conduction disturbances. The current study presents a case membranous septal aneurysm with congenitally corrected transposition of great arteries (cTGA) and sub-pulmonary obstruction, which was surgically corrected.

Case Report

An 11-year-old girl was referred to our clinic because of heart murmur and dyspnea on exertion. She had normal growth and development without cyanosis and congestive heart failure. Her medical history revealed frequent respiratory infections, but there was no history of bacterial endocarditis, rheumatic fever, or cardiac arrhythmias. Prior to admission, she had noticed progressive shortness of breath on exertion.

The physical examination revealed a grade 4/6 ejection murmur along the left fourth intercostal space and there was also a 3/6 pansystolic ejection murmur at the apex of the heart radiating to the sternum. Blood pressure was 135/90 mmHg and heart rate was 90 beats/minute. The electrocardiogram showed sinus rhythm and normal axis. The chest x-ray revealed moderate cardiomegaly. Transthoracic two-dimensional echocardiography revealed patent foramen ovale (PFO), atrio-ventricular and ventriculo-arterial discordance. Aorta was positioned on the left and anterior side of the pulmonary artery and there was a right aortic arch. Tricuspid and mitral valve coaptations were normal. Color flow and doppler examinations were showed a sub-pulmonary obstruction with 80 mmHg gradient at the valve site. There was no VSD in the doppler flow examination. Right and left heart catheterizations were performed. Catheterization confirmed the congenitally corrected transposition of the great arteries (cTGA) diagnosis. Morphologically left ventricle systolic pressure was 140 mmHg, and pulmonary artery systolic pressure was 30 mmHg with a 110 mmHg sub-pulmonary gradient. Morphologically right ventricle angiogram demonstrated an aneurysm of the septum bulging into the sub-pulmonary region (Figure 1). Surgery was planned to relieve the sub-pulmonary obstruction. Median sternotomy and aortic-bicaval cannulation was performed. Cardiopulmonary bypass was instituted with moderate hypothermia, and antegrade crystalloid potassium cardioplegic solution was used. After cross clamping, the pulmonary artery was transversely incised. At the subvalvular area, fibrotic tissue was excised (Figure 2). After the excision of the MSA, a perimembranous ventricular septal defect was observed (Figure 3). The VSD was closed via pulmonary arteriotomy with

double velour Dacron patch using the continuous technique (Figure 4). The patient was weaned from cardiopulmonary the bypass with normal sinus rhythm. After an uneventful recovery period, the patient was discharged on the postoperative fifth day.

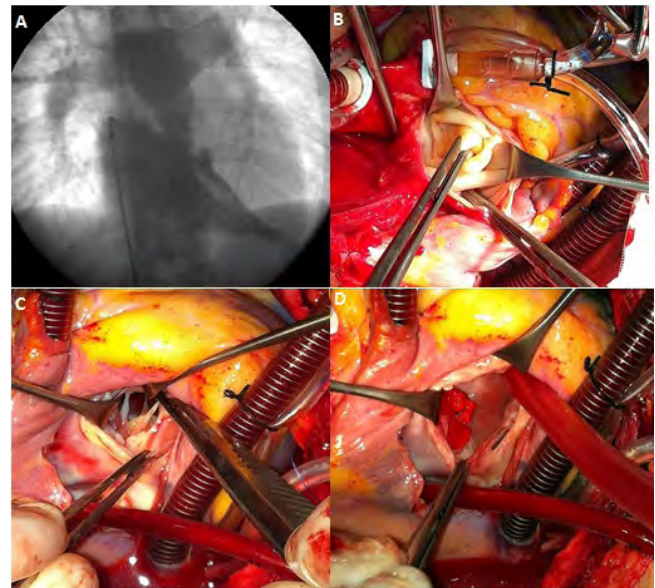


Figure 1. A. An angiographic image of membranous septal aneurysm, B. An intraoperative view of subpulmonary membranous septal aneurysm, C. An intraoperative view of ventricular septal defect after removing the membranous septal aneurysm, D. An intraoperative view of repaired ventricular septal defect

Discussion

MSA is a rare lesion that was found in 0.3 % of all congenital heart defects and was found in 19.1% of the patients who were examined for VSD [1].

Although most cases do not manifest themselves symptomatically, MSA can be the cause of systemic embolies, endocarditis, cardiac arrhythmias, left or right ventricular outflow tract obstruction, and right to left shunts secondary to ruptures.

MSA related sub-pulmonary obstruction was related in part to the intraventricular anatomy in these patients. With normal anatomy, it is unlikely that a MSA causes severe obstruction in the subpulmonary region. In contrast, in patients with cTGA, the pulmonary valve is usually in continuity with the right sided atrioventricular valve. The perimembranous ventricular septal defect is adjacent and immediately inferior to the pulmonary valve and there is no interposed crista supraventricularis. When MSA occurs in this anomaly, it is likely to cause a significant sub-pulmonary obstruction [2].

Although this defect seems small because the aneurysm limits the shunt between the ventricles, the actual VSD tends to be larger than it was estimated. It is critical to open the aneurysm to expose the true margin of the VSD for proper repair. In the literature, radial incision of the MSA or circular detachment of the tricuspid valve techniques were applied for this anomaly. But in this case it was preferred to excise the MSA by pulmonary arteriotomy and close the VSD via this arteriotomy [3,4].

A double velour Dacron patch was chosen to close the VSD because of the margins of the VSD were far enough from the pulmonary valve and there was a clear suture line in the subpulmonary area. However, in some instances there may not be a suture line in the subpulmonary area and while closing the VSD,

the pulmonary valve leaflets can be utilized to place the VSD closure stitches. In these cases, the patches that cause fibrotic reactions must be avoided for pulmonary valve functions. Additionally, if a fibrous suture line remains in place when resecting the aneurysm, closing the VSD becomes more easy and safe because the atrioventricular node lies along the antero-superior margin, which is an unusual and vulnerable place.

Aneurysm formation may be important because it reduces the functional size of an associated membranous VSD; on the other hand the aneurysm itself is associated with some severe complications. Additional surgical intervention was not observed in other series concerning the surgical treatment of MSA [5]. Therefore, we can recommend that the MSA should be operated on during childhood period in order to prevent further enlargement and subsequent complications.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Lazarev SM, Matsan VI. Aneurysm of the membraneus heart septum. *Kardiologiya* 1989;29(12):36-40.
2. Krongrad E, Ellis K, Steeg CN, Bowman FO, Malm JR, Gersony WM. Subpulmonary obstruction in congenitally corrected transposition of the great arteries due to ventricular membranous septal aneurysms. *Circulation* 1976;54(4):679-83.
3. Tateishi A, Kawada M, Takeuchi M, Taga N, Otsuka Y, Kataoka K. Radial incision for ventricular septal defect with membranous septal aneurysm. *Asian Cardiovasc Thoracic Ann* 2010;18(3):250-2.
4. Idriss FS, Muster AJ, Paul MH, Backer CL, Mavroudis C. Ventricular septal defect with tricuspid pouch with and without transposition: Anatomic and surgical considerations. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1992;103(1):52-9.
5. Ramaciotti C, Keren A, Silverman NH. Importance of perimembranous ventricular septal aneurysm in the natural history of isolated perimembranous ventricular septal defect. *Am J Cardiol* 1986(4);57:268-72.

How to cite this article:

İşık O, Baş T, Koç M, Aydın H, Kutsal A. Membranous Septal Aneurysm: An Unusual Case for Sub-Pulmonary Obstruction in cTGA. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 550-2.



Multicystic Nephroma in Elderly: A Case Report

Erişkinde Multikistik Nefroma: Bir Olgu Sunumu

Multikistik Nefroma / Multicystic Nephroma

Ediz Vuruşkan¹, Adem Altunkol¹, Hakan Erçil¹, Pelin Demirtürk², Nevzat Can Şener¹
¹Üroloji Kliniği, ²Patoloji Kliniği, Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Adana, Türkiye

Özet

Böbreğin kistik renal tümörleri benign veya malign olabilir. Multikistik nefroma böbreğin nadir görülen benign kistik lezyonudur. Genellikle solid yapılar olmaksızın tek taraflı multikistik renal kitle olarak görülür. Renal tümörlerin Dünya Sağlık Örgütü sınıflamasına göre böbreğin mix epitelyal-stromal tümörleri ile beraber sınıflandırılır. Bu çalışmamızda, kistik renal kitle nedeni ile opere ettiğimiz 50 yaşında bir kadın hastada saptanan kistik nefroma olgusunu radyoloji ve patoloji görüntüleri eşliğinde sunmayı amaçladık.

Anahtar Kelimeler

Multikistik Nefroma; Yetişkin; Cerrahi

Abstract

Cystic renal tumors of the kidney can be benign or malignant. Multicystic nephroma is a rare benign cystic lesion of the kidney, which usually presents as a unilateral multicystic renal mass without solid elements. According to the World Health Organization classification of the renal neoplasms, it is grouped along with mixed epithelial-stromal tumor of the kidney. In this study, we aimed to present a 50 year old female patient with cystic nephroma, who was referred and operated for cystic renal mass, together with pathological and radiological images.

Keywords

Multicystic Nephroma; Adult; Surgery

DOI: 10.4328/JCAM.2638

Received: 26.06.2014 Accepted: 17.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 553-5

Corresponding Author: Adem Altunkol, Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Üroloji Kliniği, Adana, Türkiye.

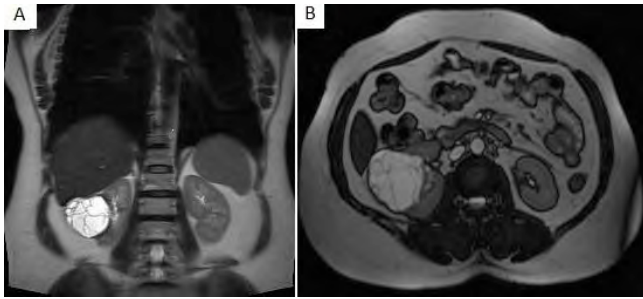
GSM: +905076074572 E-Mail: ademaltunkol@hotmail.com

Giriş

Kistik nefroma (KN), aynı zamanda multiloküler kistik nefroma olarak adlandırılır ve nadir, genetik olmayan, benign renal kistik bir lezyondur. Genellikle tek taraflı, solid nodül olmaksızın multikistik renal kitle olarak görülürler. Renal tümörlerin Dünya Sağlık Örgütü (DSÖ) sınıflamasına göre böbreğin mix epitelyal-stromal tümörleri ile beraber sınıflandırılır [1]. Genellikle çocukluk çağında ilk iki yıl içerisinde görülür ve erkeklerde iki kat daha siktir [2]. Çocukluk çağında görülen primer böbrek tümörlerinin %2-3'ünü oluşturmaktadır [2,3]. Çocuklarda başlıca şikâyeti abdominal kitle oluşturuyor iken, yetişkinlerdeki ana şikâyeti genellikle karın şişkinliği veya ağrı, tekrarlayan üriner sistem enfeksiyonu veya hematüri oluşturmaktadır [4]. Olguların büyük bir kısmı başka bir nedenle yapılan radyolojik inceleme ya da cerrahi sırasında rastlantısal olarak saptanır [1]. Erişkinlerde ise daha nadir olarak görülmesiyle birlikte, bu yaş grubunda benign biyolojik davranışı nedeniyle böbrekte kitleye neden olan diğer lezyonlardan ayrılması önemlidir. Multikistik Nefroma (MKN) tanısı konulan erişkin olgu, nadir görülmesi ve ayırıcı tanısının öneminin vurgulanması nedeniyle sunuldu ve literatür eşliğinde tartışıldı.

Olgu Sunumu

Sağ yan ağrısı nedeni ile dış merkezde yapılan batin ultrasonografisinde (USG) sağ böbrekte kitle tespit edilen 50 yaşındaki kadın hasta kliniğimize refere edildi. Yapılan fiziki muayenesinde ve laboratuvar sonuçlarında bir özellik yoktu. Hastaya yapılan üst batin manyetik rezonans görüntüleme (MRG) sağ böbrek orta polde, boyutları 70x56 mm ölçülen septalı ve heterojen sinyalli yer kaplayan lezyon tespit edildi (Resim 1A ve Resim 1B).

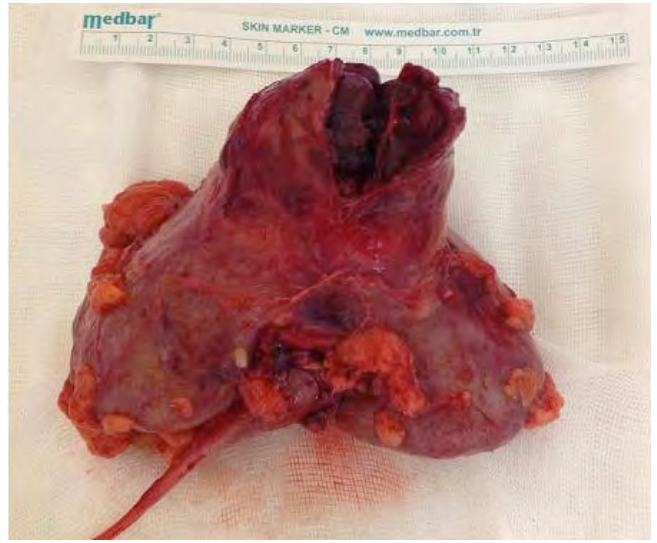


Resim 1. Multikistik nefroma koronal kesit (A) ve transvers kesit (B) MRG görüntüsü.

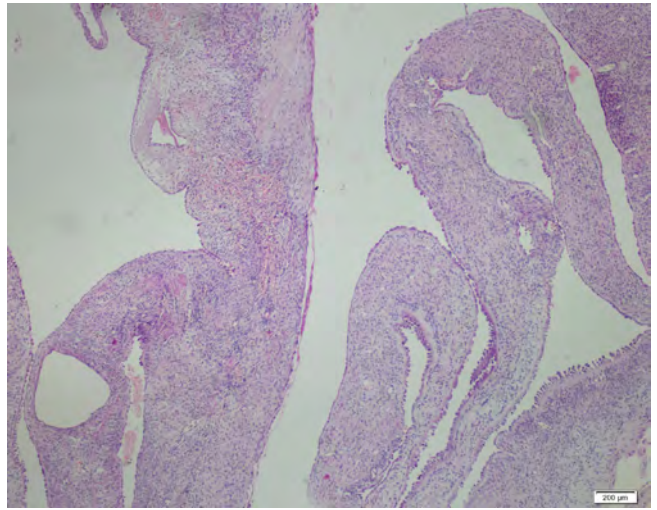
Hastaya renal kitle nedeniyle radikal nefrektomi yapıldı. Patolojik inceleme sonucunda makroskopisinde, 10x5x4 cm ölçülerinde, üzerinde 4 cm uzunluğunda üreterin bir kısmının da bulunduğu nefrektomi piyesi ve buna bitişik orta polde yerleşmiş, çevre yağlı doku içerisine doğru büyüme gösteren, 5,5x5x4,5 cm ölçülerinde multikistik yapıda, orta sertlikte, belirgin kanamalı kistik tümöral oluşum görüldü (Resim 2). Mikroskopik incelemede iğsi hücreli selüler stroma ile ayrılan, küboidal epitelyum ile döşeli, multipl kistlerden oluşan neoplazm görüldü ve MKN tanısı konuldu (Resim 3).

Tartışma

MKN benign renal bir tümördür. Tümör büyük, iyi kapsüllü, non-infiltratiftir ve birbiriyle bağlantısı olmayan içi sıvı dolu loküllerden oluşur. Genellikle genişler ve böbreğin majör bölümlerine yerleşir. Edmunds böbreğin kistik adenomu olarak 1982 de



Resim 2. 10x5x4 cm ölçülerinde, üzerinde 4 cm uzunluğunda üreterin bir kısmının da bulunduğu nefrektomi piyesi ve buna bitişik orta polde yerleşmiş, çevre yağlı doku içerisine doğru büyüme gösteren, 5,5x5x4,5 cm ölçülerinde multikistik yapıda, orta sertlikte, belirgin kanamalı kistik tümöral oluşum.



Resim 3. İğsi hücreli selüler stroma ile ayrılan, küboidal epitelyum ile döşeli multiple kistlerden oluşan neoplazm (H&E x40).

ilk KN vakasını rapor etmiştir [5]. Uluslararası literatürde şimdiye kadar 200 den az vaka rapor edilmiştir [6]. MKN'nin ayırıcı tanısı kistik parsiyel diferansiye nefroblastoma, kistik değişikliği olan wilms tümörü, multikistik displastik böbrek, malign nekrotik ve hemorajik kitleler (renal hücreli karsinom) ve kistik mezoblastik nefromayı içerir [5]. Tümör sıklıkla diğer nedenler için yapılan rutin araştırmalar esnasında ortaya çıkar veya hastalar genellikle nonspesifik semptomlarla başvururlar. Abdominal ağrı, hematüri ve üriner sistem enfeksiyonu erişkinlerde en yaygın olanlarıdır. Hematüri tüm yaş gruplarında görülür ve tümörün renal pelvis içine yayılımına bağlı olduğu düşünülür. Tümörün malign kistik neoplazmlardan ayrılması zordur. USG ve bilgisayarlı tomografi (BT) gibi görüntüleme yöntemlerinde genellikle multiloküler karakterde olduğu görülür. Ancak Bosniak sınıflamasında sınıf II ve sınıf III arasındaki farkı ayırt etmek sıklıkla zordur. Renal Doppler inceleme yapılmasının hipovasküler veya avasküler lezyon olarak MKN'nin gösterilmesinde yararlı olduğu görülür. Renal anjiyografi spesifik değildir. İnce iğne aspirasyon biyopsisi görüntüleme yöntemleri ile birlikte çocuklarda yararlı olabilir. Fakat yetişkinlerde değeri sınırlıdır [7,8].

Kendi olgumuz literatüre benzer olarak nonspesifik semptom-

larla yapılmış USG sonucunda, insidental olarak kitle tespit edilmesi üzerine kliniğimize refere edilmiştir. MKN genellikle tek böbreği etkilemesine rağmen nadir olarak bilateral rapor edilmiştir [9]. Erişkin MKN olguları önemli bir oranda klinik olarak malignite ile, özellikle de multiloküler kistik renal hücreli karsinom ile karışır [2,10]. Erişkin olgularda bu tümörü tanınmanın prognostik önemi vardır. Çünkü MKN böbreğe sınırlı bir lezyondur ve cerrahi sonrası kür sağlanır [11]. Ancak literatürde radikal cerrahi yapılmamış hastaların takiplerinde nüks gelişen olgular ile, MKN'ye bağlı malignite gelişen olgular bildirilmiştir [12,13]. Hastamıza radikal nefrektomi uyguladık ve dokuz aylık takip süresinde herhangi bir nüks gelişmedi. Literatüre göre kısa takip süremize rağmen olgumuz sağ ve sağlıklıdır.

Sonuç olarak; MKN operasyon öncesinde ayırıcı tanısını yapmak olanaksız bir benign renal tümördür. Cerrahi girişim hem tanı koydurucu hem de küratiftir. Sınırlı sayıda olgu tanımlanmış olması, belirsiz onkolojik davranışlar göstermesi ve izlem için tavsiyelerin açık olmayışı post-operatif takibi zorunlu kılmaktadır.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Bonsib SM. Cystic nephroma. Mixed epithelial and stromal tumor. In: Eble JN, Sauter G, Epstein JL, Sesterhenn IA, editors. Pathology and genetics of tumors of the urinary system and male genital organs; WHO classification of tumours. Lyon: IARC Press; 2004. p.76.
2. Duda-Szymańska J, Kaczmarek J, Papierz W. Cystic nephroma in adults. A report of two cases and review of the literature. Pol J Pathol 2005;56(2):93-6.
3. Rosai J. Urinary tract. In: Rosai J, editors. Rosai and Ackerman's Surgical Pathology. 9th ed. London: Mosby; 2004. p.1163-316.
4. Bisceglia M, Galliani CA, Senger C, Stallone C, Sessa A. Renal cystic diseases: a review. Adv Anat Pathol 2006;13(1):26-56.
5. Mehra BR, Thawait AP, Akther MJ, Narang RR. Multicystic nephroma masquerading as Wilms' tumor: A clinical diagnostic challenge. Saudi J Kidney Dis Transpl 2011;22(4):774-8.
6. Stamatou K, Polizois K, Kollaitis G, Dahanis S, Zafeiropoulos G, Leventis C et al. Cystic nephroma: A case report and review of the literature. Cases J 2008;23(1):267.
7. Falidas E, Ntasi A, Mathioulakis S, Vlachos K, Anyfantakis G, Boutzouvis S et al. Multicystic nephroma in an elderly man. Case report. G Chir 2011;32(11-12):483-6.
8. Wilkinson C, Palit V, Bardapure M, Thomas J, Browning AJ, Gill K et al. Adult multilocular cystic nephroma: Report of six cases with clinical, radio-pathologic correlation and review of literature. Urol Ann 2013;5(1):13-7.
9. Cheng EY, Cohn RA, Palmer LS, Fernbach S, Firlit CF. A rare case of bilateral multilocular renal cysts. J Urol 1997;157(5):1861-2.
10. Eble JN, Bonsib SM. Extensively cystic renal neoplasms: cystic nephroma, cystic partially differentiated nephroblastoma, multilocular cystic renal cell carcinoma and cystic hamartoma of renal pelvis. Semin Diagn Pathol 1998;15(1):2-20.
11. Boulanger SC, Brisseau GF. Cystic nephroma: a benign renal tumor of children and adults. Surgery 2003;133(5):596-7.
12. Ferrer FA, McKenna PH. Partial nephrectomy in a metachronous multilocular cyst of the kidney (cystic nephroma). J Urol 1994;151(5):1358-60.
13. Omar AM, Khattak AQ, Lee JA. Cystic renal cell carcinoma arising from multilocular cystic nephroma of the same kidney. Int Braz J Urol 2006;32(2):187-9.

How to cite this article:

Vuruşkan E, Altunkol A, Erçil H, Demirtürk P, Şener NC. Multicystic Nephroma in Elderly: A Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 553-5.



A Case of Iris Mammillation Associated with Nevus of Ota

İris Mammillasyonunun Eşlik Ettiği Ota Nevüs Olgusu

Ota Nevüs / Ota Nevus

Onur Polat¹, Pınar Özügüz², Seval Doğruk Kaçar²

¹Göz Hastalıkları AD, ²Dermatoloji AD, Afyon Kocatepe Üniversitesi, Afyonkarahisar, Türkiye

Bu çalışma 7-11 Mayıs 2014 tarihinde Marmaris'te yapılmış olan 9. Ege Dermatoloji Günleri'nde e-poster olarak sunulmuştur.

Özet

Ota nevus, trigeminal sinirin birinci ve ikinci dallarının innerve ettiği bölgelerdeki deri ve mukozalarda pigmentasyon artışı ile karakterizedir. Kadınlarda erkeklere göre 3 kat daha sıktır. Konjenital olabileceği gibi bazı olgularda pubertede hatıta erişkin dönemde ortaya çıkabilir. Burada, ota nevüsü olan bir olgu, iris heterokromisi ve nadir görülen iris mammillasyonunun eşlik etmesi nedeniyle sunulmaktadır. İris heterokromisinin ve iris mamillasyonunun glokom ve özellikle uveal melanomla ilişkileri sebebiyle ota nevüslü her olgu, düzenli göz muayenesi ile yakın takip edilmelidir.

Anahtar Kelimeler

Ota Nevüs; İris Heterokromisi; İris Mammillasyonu; Melanom

Abstract

Nevus of Ota is characterized by the presence of hyperpigmentation in the skin areas innervated by the first or the second branches of the trigeminal nerve. Women are affected three times as often as men. Although nevus of Ota is a congenital disorder, it can be seen in puberty or adulthood. Herein a case of nevus of Ota was reported accompanying iris heterochromia and rare iris mammillation. Because of the relationship between iris heterochromia and iris mammillation with glaucoma and especially uveal melanoma, all the patients with nevus of Ota should be monitored closely with regular ophthalmologic examination.

Keywords

Nevus Of Ota; Iris Heterochromia; Iris Mammillation; Melanoma

DOI: 10.4328/JCAM.2615

Received: 11.06.2014 Accepted: 23.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 556-8

Corresponding Author: Pınar Özügüz, AKÜ Araştırma ve Uygulama Hastanesi, Dermatoloji Kliniği, Ali Çetinkaya Kampüsü, 03200, Afyonkarahisar, Türkiye.

GSM: +905055210335 F.: +90 2722463300 E-Mail: pozoguz@gmail.com

Giriş

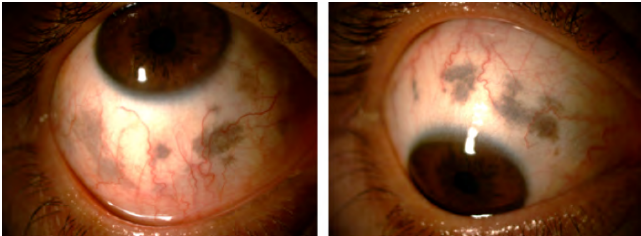
Naevus fusculoeruleus ophthalmomaxillaris olarak da bilinen Ota nevus, trigeminal sinirin 1. ve 2. dallarının innerve ettiği bölgelerdeki deri ve mukozalarda pigmentasyon artışı ile karakterizedir. Asya toplumunda ve kadınlarda daha sık görülen lezyon konjenital olabileceği gibi pubertede hatta erişkin dönemde de ortaya çıkabilir. Lezyonlar genellikle unilateraldir ancak olguların %5'inde bilateral olduğu bildirilmiştir [1].

Ota nevüs olgularında, konjonktiva, episklera, sklera, kornea, iris, koroid, retina, ekstra oküler kaslar, retrobülber yağ dokusu ve periostiumda yerleşebilen benekli pigmentasyon görülebilir [2]. Ayrıca timpanik membran, oral ve intranasal mukoza ve leptomeninksler melanositik lezyonların gözleendiği diğer ilişkili bölgelerdir [3].

Ota nevüsünde en sık koroid ve orbitada olmak üzere deri, iris, siliyer cisim ve beyinde malign dönüşümler gözlenebilir. Asyalılarda Ota nevüsü daha sık görülmesine karşılık malign dönüşüm insidansı beyaz ırkta daha yüksektir [4].

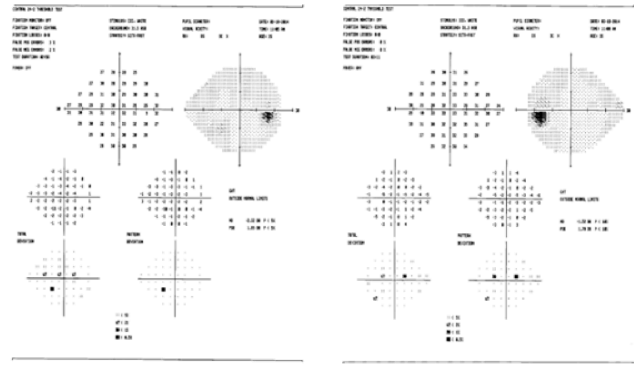
Olgu Sunumu

Otuz beş yaşında erkek hasta göz çevresinde koyulaşma şikayetiyle polikliniğimize başvurdu. Bu şikayetlerinin 15 yaşından itibaren olduğu öğrenildi. Özgeçmişinde ve soygeçmişinde özellik bulunmayan hastanın fizik muayenesinde bir patoloji saptanmadı. Dermatolojik muayenesinde trigeminal sinirin 1. ve 2. sinir dallarında lokalize pigmentasyon mevcuttu. Hastanın diğer mukozalarında herhangi bir patoloji izlenmedi ve laboratuvar tetkiklerinde anormallik saptanmadı. Hastanın yapılan oftalmolojik muayenesi sonucu, sağ periorbital deride, sklera ve episklerada superior ve inferior lokalizasyonlarda hiperpigmentasyon saptandı (Şekil 1). Görme keskinliği her iki gözde tam idi. Göz

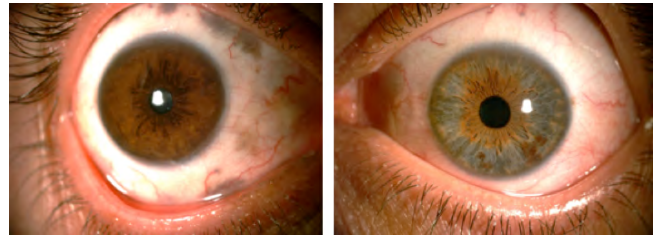


Şekil 1. Sağ gözde inferior (sol) ve superior (sağ) lokalizasyonlarda hiperpigmentasyon

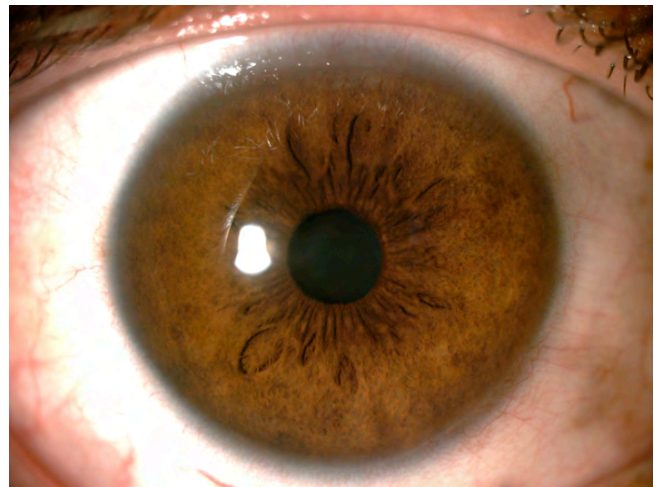
hareketleri her yöne serbest idi. Goldman aplanasyon tonometrisi ile her iki göz basıncı 16 mmHg saptandı. Pakimetri ile ölçülen santral korneal kalınlık değerleri her iki gözde normal sınırlarda idi. Gonioskopik muayene sonucu her iki gözde iridokorneal açının açık olduğu ancak sağ gözde trabeküler hiperpigmentasyonun eşlik ettiği gözleendi. Optik kohorens tomografi (OCT) ön segment görüntüleme ile her iki iridokorneal açının açık ve birbirine eşit olduğu tespit edildi. Humphrey 24-2 görme alanı testi ve OCT ile elde edilen optik disk görüntüleme sonucu glomatomatöz değişiklikler saptanmadı (Şekil 2). Sağ gözde iris hiperpigmentasyonu nedeniyle iris heterokromisi saptanan hastanın sağ gözünde iris mammillasyonu eşlik etmekte idi (Şekil 3,4). Fundus muayenesi ve OCT görüntüleme sonucu her iki gözde optik disk ve makula normal görünümde olup retinada eşlik eden herhangi bir patolojik bulgu saptanmadı. Hertel eksoftalmometre ile ölçülen değerler her iki gözde normal sınırlarda olup eşlik eden proptozis saptanmadı. Hasta nevüsü hakkında bilgilendirildi ve takibe alındı.



Şekil 2. Sağ gözde (sol) ve sol gözde (sağ) normal görünümde görme alanı testi



Şekil 3. Sağ gözde iris hiperpigmentasyonu sonucu ortaya çıkan iris heterokromisi



Şekil 4. Sağ gözde iris ön yüzünde eşlik eden iris mammillasyonları

Tartışma

Ota nevüs, nöral krestten göç sırasında nevus hücrelerinin dermiste duraklaması sonucu oluşur. Ota nevusun patogenezinin multifaktöryel olduğu kabul edilmektedir. Hastalığın çoğunlukla Asyalılarda gözlenmesi genetik faktörlerin önemini ortaya koyar [3]. Beyaz ırkta hastalık daha nadir görülmekle birlikte yapılan bir çalışmada hastalığın görülme sıklığı tüm dermatoloji polikliniğine başvuran hastalar arasında %0.038 olarak tahmin edilmiştir [2].

Ota nevüsünde oküler dokularda hiperpigmentasyon tipik olarak sklera, üveal trakt ve ön kamarada ortaya çıkmaktadır. Etkilenen tarafta iris rengi koyulaşmakta ve % 57.2 oranında heterokromi tablosu oluşmaktadır [5]. Ayrıca iris yüzeyinde iris mammillasyonu olarak adlandırılan izole, Ota nevusunun ilk bulgusu veya koroidal melanomla ilişkili olabilen ince, pigmente nodüller oluşabilmektedir. Yoğun koroidal pigmentasyon sonucu etkilenen gözün fundusu daha koyu görülmektedir ve bu bulgular

glokom ve oküler melanom riskini arttırmaktadır [6]. Olgumuzda sağ gözde heterokromi ve iris mamillasyonu bulunmakla birlikte malign transformasyon lehine bulgu saptanmadı.

Glokomun eşlik ettiği veya etmediği göz içi basıncının artması (%10.3), glokomla ilişkili olmayan optik sinir başı çukurluğunun artması (%9.8), üveit (%2.6), katarakt (%1) ve orbital melanom (%0.5) oluşabilecek oküler komplikasyonlardır. Glokomun ortaya çıkış mekanizması birikmiş melanositlerin aköz dışı akımı engellemesidir [7]. Magarasevic ve ark [8], Ota nevusu tanısı ile takip ettikleri bir olguda, heterokromi ve iridokorneal açıda pigmentasyon artışı ile birlikte açık açılı glokomun ortaya çıktığını bildirmişlerdir ve glokom ortaya çıkmadan önce iridokorneal açıda pigmentasyonun başladığı ve pigmentasyon yoğunluğunun artışı ile birlikte glokom riskinin yükseldiği sonucuna varmışlardır. Buna karşılık, Cronemberger ve ark [5] Ota nevusu tanısı olan 8 hastanın gonyoskopik muayene sonucu tespit edilmiş trabeküler hiperpigmentasyona glokomun eşlik etmediğini bildirmişlerdir. Bizim olgumuzda heterokromi ve trabeküler hiperpigmentasyon eşlik etmesine rağmen göz içi basıncı normal sınırlarda idi ve oküler muayene ve görüntüleme yöntemleri sonucu glokom bulgularına rastlanmadı.

Sonuç olarak özellikle Uzakdoğu'da sık rastlanan bir deri lezyonu olan Ota nevüs beyaz ırkta nadir görülmesine karşılık malign dönüşüm riski beyaz ırkta daha yüksektir. Deri ve göz bulguları açısından özellikle heterokromi, trabeküler hiperpigmentasyonu ve iris mamillasyonu olan olgular glokom ve uveal melanomla ilişkisi sebebiyle uzun süreli oftalmolojik takip gerektirir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Hirayama T, Suzuki T. A new classification of Ota's nevus based on histopathological features. *Dermatologica* 1991;183(3):169-72.
2. Wang HW, Liu YH, Zhang GK, Jin HZ, Zuo YG, Jiang GT et al. Analysis of 602 Chinese cases of nevus of Ota and the treatment results treated by Q-switched alexandrite laser. *Dermatol Surg* 2007;33(4):455-60.
3. Hidano A, Kajima H, Ikeda S, Mizutani H, Miyasato H, Niimura M. Natural history of nevus of Ota. *Arch Dermatol* 1967;95(2):187-95.
4. Dutton JJ, Anderson RL, Schelper RL, Purcell JJ, Tse DT. Orbital malignant melanoma and oculodermal melanocytosis: report of two cases and review of the literature. *Ophthalmology* 1984;91(5):497-507.
5. Cronemberger S, Calixto N, Freitas HL. Nevus of Ota: clinical-ophthalmological findings. *Rev Bras Oftalmol* 2011;70(5):278-83.
6. Ozdamar Y, Elgin U, Ucakhan O, Berker N, Zilelioglu O. A case of bilateral iris mamillations with unusual pupillary appearance and pseudo-hypertension. *Clin Exp Optom* 2007;90(6):471-3.
7. Khawly JA, Imami N, Shields MB. Glaucoma associated with the nevus of Ota. *Arch Ophthalmol* 1995;113(9):1208-9.
8. Magarasevic L, Abazi Z. Unilateral open-angle glaucoma associated with the ipsilateral nevus of Ota. *Case Rep Ophthalmol Med* 2013; DOI: 10.1155/2013/924937.

How to cite this article:

Polat O, Özügüz P, Kaçar SD. A Case of Iris Mammillation Associated with Nevus of Ota. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 556-8.



A Case of Hidroacanthoma Simplex Mimicking Bowen's Disease

Bowen Hastalığını Taklit Eden Hidroakantoma Simpleks Olgusu

Hidroakantoma Simpleks / Hidroacanthoma Simplex

Pınar Özügüz¹, Seval Doğruk Kaçar¹, Serap Polat¹, İlyas Özardalı², Betül Demirciler Yavaş²

¹Afyon Kocatepe Üniversitesi, Dermatoloji AD, ²Afyon Kocatepe Üniversitesi, Patoloji A.D, Afyonkarahisar, Türkiye

Özet

Hidroakantoma simpleks; ekrin ter bezi kanallarından köken alan, nadir benign bir tümördür. Lezyonlar, yavaş büyüyen, düz ya da hafif eleve, deri renginde, kahverengi veya eritematöz, verrüköz papül ve plaklar ile karakterizedir. Klinik olarak plaklar, seboreik keratoz, bazal hücreli karsinom ve Bowen hastalığına benzeyebilir. Burada, Bowen hastalığını taklit atipik lokalizasyonlu bir hidroakantoma simpleks olgusu sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler

Hidroakantoma Simpleks; Bowen Hastalığı

Abstract

Hidroacanthoma simplex is a rare benign tumor that originates from eccrine sweat gland ducts. The lesions are characterized by slowly-growing, flat or slightly elevated, skin-colored, brown or erythematous, verrucous papules or plaques. Clinically, plaques may resemble seborrheic keratosis, basal cell carcinoma and Bowen's disease. Here, we present a case of atypically localized hidroacanthoma simplex mimicking Bowen's disease.

Keywords

Hidroacanthoma Simplex; Bowen's Disease

DOI: 10.4328/JCAM.2618

Received: 16.06.2014 Accepted: 24.07.2014 Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 559-61

Corresponding Author: Pınar Özügüz, AKÜ Araştırma ve Uygulama Hastanesi, Dermatoloji Kliniği, Ali Çetinkaya Kampüsü, 03200, Afyonkarahisar, Türkiye.

GSM: +905055210335 F.: +90 2722463300 E-Mail: pozoguz@gmail.com

Giriş

Hidroakantoma simpleks, ekrin bezlerden köken alan nadir ve benign bir ter bezi tümörüdür. Sıklıkla palmopantar bölgede, alt ekstremitelerde ve gövdede yerleşmekle birlikte, bu tümörlerin vücudun farklı bölgelerinde de ortaya çıkabileceği bildirilmiştir. Yavaş büyüyen, deri renginde, pigmente ya da eritemli, verrüköz plak şeklindeki klinik görünümü ile seboreik keratoz, bazal hücreli karsinom ya da Bowen hastalığına benzeyebilmektedir [1, 2]. Burada Bowen hastalığını taklit eden, nadir bir lokalizasyondaki hidroakantoma simpleks olgusu sunulmuştur.

Olgu Sunumu

Elli altı yaşında bayan hasta, sağ meme üzerinde kırmızı kabarıklık şikayetiyle polikliniğimize başvurdu. Lezyonun yaklaşık 2 yıldır olduğu, zamanla büyüdüğü ve hastanın bu lezyon nedeniyle daha önce hiç tedavi almadığı öğrenildi. Yapılan dermatolojik muayenede; sağ meme üzerinde, klavikula altında lokalize, yaklaşık 1 cm çapında, hafif eritemli, hiperpigmente ve verrüköz yapıda bir adet asemptomatik plak izlendi (Resim 1). Lezyondan; Bowen hastalığı, seboreik keratoz ve kutanöz papillom ön tanılarıyla punch biyopsi alındı. Histopatolojik incelemede; epidermiste stratum spinosumda bir kaç odakta grup oluşturan eozinofilik sitoplazmalı hücre toplulukları ve bu hücre topluluklarının arasında az sayıda duktal yapılar saptandı (Resim 2). İmmunohistokimyasal incelemede ise; CEA, S-100, CK7, CK20 negatifti. Mevcut histopatolojik ve immunohistokimyasal bulgular ile hidroakantoma simpleks tanısı konuldu. Hasta bilgilendirildi ve lezyonun tamamının eksizyonu önerildi.

Tartışma

Hidroakantoma simpleks; ilk olarak 1956'da Coburn ve Smith [3] tarafından tanımlanmıştır. Daha sonraki yıllarda; lezyondaki hücrelerin, ekrin ter bezi kanallarındaki ile aynı enzimatik aktiviteye sahip olduğu saptanmış ve "intraepidermal ekrin poroma" terimi kullanılmaya başlanmıştır [2]. Sıklıkla, ekrin ter bezlerinin yoğun olarak bulunduğu palmopantar bölgede ortaya çıkmaktadır. Ancak alt ekstremitelerde, kalça, omuz, göğüs, karın, sırt, boyun, saçlı deri, yüz, kulak, postaurikular bölge gibi farklı lokalizasyonlarda da bildirilmiştir [4]. Lezyonlar genellikle erişkin yaş grubunda ve her iki cinsiyette eşit oranda görülmektedir. Yavaş büyüyen, deri renginde, pigmente ya da eritemli, verrüköz papül ya da plak şeklinde prezente olmaktadır. Bu nedenle de bazı lezyonlarla ayırıcı tanısı güç olabilmektedir. Onbeş hidroakantoma simpleksli olgunun sunulduğu bir derlemede; rutin olarak alınan deri biyopsileri hidroakantoma simpleks olarak sonuçlanan hastaların daha önce klinik olarak seboreik keratoz, bazal hücreli epitelyoma, skuamöz hücreli karsinom, Bowen hastalığı, aktinik keratoz gibi tanımlar aldığı belirtilmiştir [1]. Bizim olgumuzda da sağ meme üzerinde, yavaş büyüme gösteren, hafif eritemli, hiperpigmente, verrüköz bir plak mevcuttu. Bowen hastalığı genellikle vücudun güneş gören yerlerinde yerleşme eğilimi göstermekle birlikte atipik lokalizasyonlarda yerleşim gösteren lezyonlar da bildirilmiştir [5]. Bu nedenle olgumuzun ayırıcı tanısında Bowen hastalığı, seboreik keratoz ve kutanöz papillom düşünülmüştü.

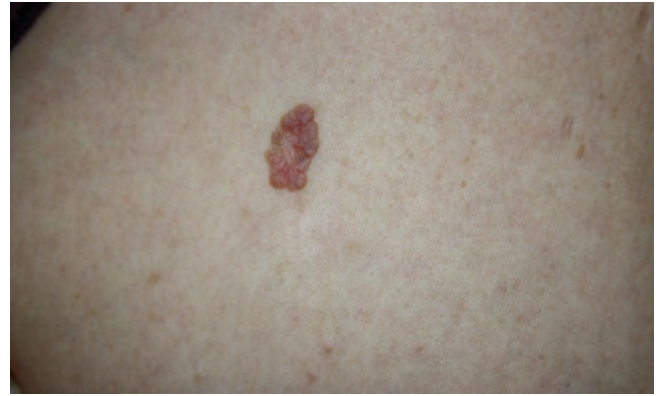
Histopatolojisinde; Borst-Jadassohn fenomeni, eozinofilik sitoplazmalı kompakt küboidal keratinosit hücre kümeleri, intrasitoplazmik glikojen depolanması, hücre kümeleri içerisinde ara ara

duktal yapılar görülmektedir [1]. Olgumuzdan alınan biyopsi örneğinde de eozinofilik sitoplazmalı hücre kümeleri ve duktal yapılar gözlenmiştir. Ekrin ter bezlerinin intraepidermal kanallarından köken alan benign karakterli bir tümör olmakla birlikte nadiren malign varyantları da bildirilmektedir [6]. Yetmiş olgunun gözden geçirildiği bir makalede; atipik hücre, mitotik hücre gibi malign varyantlara işaret eden yapıların %10 oranında gözlemlendiği belirtilmiştir [6]. Bu nedenle histopatolojik incelemede malign transformasyonu düşündürebilecek özellikler açısından dikkatli olunmalıdır. Olgumuzda herhangi bir atipik özellik saptanmadı.

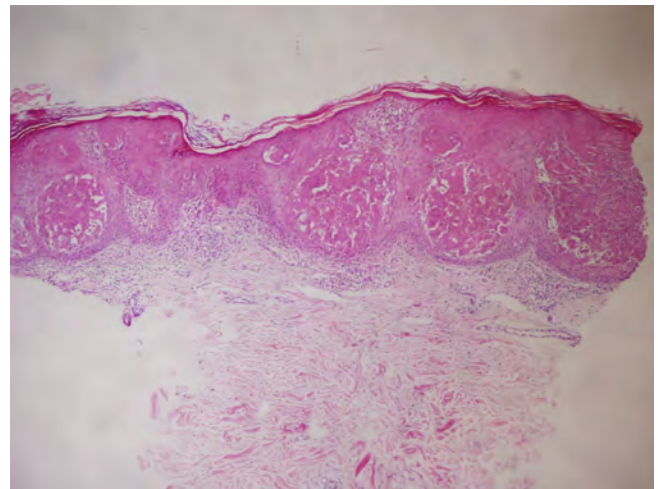
Ter bezi orijinli tümörlerde, immunohistokimyasal olarak karsinoembriyonik antijenin pozitif olduğu bildirilmiştir [7]. Bununla birlikte Perniciaro ve ark.nın [8] yaptığı bir çalışmada karsinoembriyonik antijen, epitelyal membran antijen ve antikera-tin antikorların immunohistokimyasal incelemesinin hidroakantoma simpleks tanısında yardımcı olmadığı belirtilmiştir. Olgumuzda da CEA, S-100, CK7, CK20 negatif olarak değerlendirildi.

Sonuç

Hidroakantoma simpleks nadir görülen bir tümör olmakla birlikte, gövdede lokalize, uzun süreli, papül ve plakların ayırıcı tanısında düşünülmesi gereken bir antitedir. Her ne kadar benign bir lezyon olarak bilinse de, malign dejenerasyon gösterme riski taşımaktadır. Lezyonun atipik lokalizasyonda olması bu anlamda uyarıcı olabilir. Tedavide öncelikli olarak lezyonun eksizyonu önerilmektedir.



Resim 1. Sağ meme üzerinde hafif eritemli, hiperpigmente, verrüköz yapıda bir plak izlenmektedir.



Resim 2. Stratum spinosumda bir kaç odakta grup oluşturan eozinofilik sitoplazmalı hücre toplulukları ve bu hücre topluluklarının arasında az sayıda duktal yapılar görülmektedir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Rahbari H. Hidroacanthoma simplex-a review of 15 cases. Br J Dermatol 1983;109(2):219-25.
2. Holubar K, Wolff K. Intra-epidermal eccrine poroma: a histochemical and enzyme-histochemical study. Cancer 1969;23(3):626-35.
3. Coburn JG, Smith JL. Hidroacanthoma simplex; an assessment of a selected group of intraepidermal basal cell epitheliomata and of their malignant homologues. Br J Dermatol 1956;68(12):400-18.
4. Hyman AB, Brownstein MH. Eccrine poroma. An analysis of forty-five new cases. Dermatologica 1969;138(1):29-38.
5. Bozkurt M, Kapı E, Gulsun N. Atipik yerleşim gösteren multiple karsinoma in situ (bowen) hastalığı olgusu. J Clin Anal Med 2010;DOI: 10.4328/2010/229.
6. Anzai S, Arakawa S, Fujiwara S, Yokoyama S. Hidroacanthoma simpleks: a case report and analysis of 70 Japanese cases. Dermatology 2005;210(4):363-5.
7. Penneys NS, Nadjı M, Morales A. Carcinoembryonic antigen in benign sweat gland tumors. Arch Dermatol 1982;118(4):225-7.
8. Perniciaro C, Muller SA, Zelickson BD, Snow JL. Hidroacanthoma simplex: an ultrastructural and immunohistochemical study. J Cutan Pathol 1994;21(3):274-9.

How to cite this article:

Özügüz P, Kaçar SD, Polat S, Özardalı İ, Yavaş BD. A Case of Hidroacanthoma Simplex Mimicking Bowen's Disease. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 559-61.



Autistic Spectrum Disorder in Two Brothers with Congenital Visual Impairment: A Case Report

Doğuştan Görme Kaybı Olan İki Kardeşte Otistik Spektrum Bozukluğu: Olgu Sunumu

Görme Kaybı ve Otistik Spektrum Bozukluğu / Visual Impairment and Autistic Spectrum Disorder

Hatice Altun¹, Ebru Fındıklı², Lokman Aslan³

¹Çocuk ve Ergen Ruh Sağlığı ve Hastalıkları AD, ²Psikiyatri AD, ³Göz Hastalıkları AD, Kahramanmaraş Sütçü İmam Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kahramanmaraş, Türkiye

Özet

Otistik spektrum bozukluğu sosyal etkileşimde ve iletişimde bozulmalar ve tek-rarlayıcı, basmakalıp davranış örüntüsü, ilgi ve aktivitelerin bulunması ile karakterizedir. Genetik ve çevresel faktörler tarafından etkilendiği düşünülen, etyolojisi tam olarak bilinmeyen davranışsal bir bozukluk olarak tanımlanmıştır. Doğuştan görme kaybı olan çocukların genellikle geri çekilme, izolasyon ve otizm gibi ciddi davranışsal ve psikolojik problemler için risk altında olduğu bildirilmektedir. Birkaç çalışmada görme kaybı olan bireylerde otizm veya otistik davranışların birlikteliği tanımlanmıştır. Bizim bilgilerimize göre doğuştan görme kaybı olan ve komorbid otistik spektrum bozukluğu olan iki kardeşle ilgili bir olguya rastlanmamıştır. Bu olgu sunumunda, otistik spektrum bozukluğu için ayrı ayrı risk faktörü olan, genetik yatkınlık ve doğuştan görme kaybı komorbiditesinin vurgulanması amaçlanmıştır.

Anahtar Kelimeler

Otistik Spektrum Bozukluk; Doğuştan Görme Kaybı; Genetik; Çocuklar; Komorbidite

Abstract

Autistic spectrum disorder is characterized by severe qualitative impairments in socialization, communication, and restricted repetitive behavior, interests and activities. It is a behaviorally defined disorder of unknown etiology that is thought to be influenced by genetic and environmental factors. Congenital visual impairment children are generally reported to be at risk for serious behavioral and psychological problems, such as withdrawal, isolation, and autism. Several studies have described the coexistence of autism or autistic behaviors in visually impaired individuals. To our knowledge, there is no case report about congenital visual impairment and comorbid autistic spectrum disorder in two brothers. In this case report, we aim to emphasise the comorbidity of congenital visual impairment and genetic predisposition which are risk factors for autism separately.

Keywords

Autistic Spectrum Disorder; Congenital Visual Impairment; Genetic; Children; Comorbidity

Giriş

Otistik spektrum bozukluğu (OSB), toplumsal etkileşim ve iletişim alanlarında belirgin gecikme ve sapmalarla ve ilgi alanlarında kısıtlılıkla seyreden bir nöropsikiyatrik bozukluktur. Olguların önemli bir kısmında zeka geriliği ve nöbetler tabloya eşlik etmekte, erişkinlik döneminde bağımsız yaşama şansı oldukça düşük düzeyde olmaktadır [1]. Bu ciddi nörogelişimsel bozukluğun temelinde yatan nedeni anlamaya yönelik çalışmalarda artışa rağmen, etyolojik neden tam olarak anlaşılamamıştır. Psikososyal etkenlerin, prenatal-postnatal etkenlerin, nörobiyolojik faktörlerin ve genetik yatkınlığın hastalığın ortaya çıkmasında etkili olabileceği öne sürülmektedir [2].

Doğuştan görme kaybı (DGK) olan çocukların genellikle izolasyon, çekilme ve OSB gibi ciddi davranışsal ve psikolojik sorunlar açısından risk altında olabileceği bildirilmektedir [3]. Bazı çalışmalarda görme engelli çocuklarda OSB benzeri belirtilerin veya OSB'nin birlikteliği bildirilmiştir [4,5]. Ayrıca DGK'lı olgularda rastlanan bazı semptomların OSB semptomları ile benzer olması nedeniyle ayırıcı tanı güç olabilmektedir. Bu nedenle DGK'lı çocuklarda OSB'nin belirlenmesi, bu çocukların uygun tedavi ve rehabilitasyonu açısından önemlidir.

Genel olarak OSB'de genetik faktörlerin hastalığın ortaya çıkmasının %90'ından fazlasından sorumlu olduğu bildirilmektedir [6]. OSB'nin genetik kökenli hastalıklarla birlikte görülebilmesi, monozigot ikizlerde görülen yüksek konkordans ve hastalığın kardeşlerde ortaya çıkma riskinin fazlalığı hastalığın etyolojisinde kalıtsal etkenlerin önemini ortaya koymaktadır [1,2,6]. OSB etyolojisinde DGK ve genetik yatkınlık ayrı ayrı risk faktörleridir. Ancak biz, literatürde eşzamanlı bu etyolojik faktörlerin gösterildiği vakaya rastlamadık. Bu olgu, hem genetiğin hem de fiziksel faktörlerin OSB etyolojisinde risk faktörü olabileceği düşünülen, DGK'lı iki kardeşte OSB'nin klinik özellikleri ve komorbiditenin önemi açısından sunulmuştur.

Olgu Sunumu

Olgu1: 4 yaş 11 aylık DGK olan erkek hasta, konuşmama, çevresiyle iletişim kurmama, sürekli sallanma ve el hareketi yapma, seslenince tepki vermeme şikayetleriyle ailesi tarafından kliniğimize getirildi. Aile ile yapılan psikiyatrik görüşmede, olgunun konuşmadığı, seslenince tepki vermediği, yaşıtlarıyla uygun ilişki geliştiremediği, oyuncaklara ilgisinin olmadığı, duygusal ve sosyal tepki vermesinin yetersiz olduğu, ilgilendiği bir şeyi paylaşmadığı, televizyonda ya da cep telefonunda sürekli ilahi dinlediği, kendi halinde sallandığı, sürekli el çırpma ve döndürme şeklinde hareketlerinin olduğu, zaman zaman hırçınlığının olduğu öğrenildi.

Yapılan ruhsal değerlendirilmesinde, seslenince ismine bakmadığı görüldü. Jest, mimik ya da sosyal gülümsemesi yoktu. İki gözü de görmüyordu. Eline verilen oyuncakla oynamadı. İfade edici dilinin hiç gelişmediği, yaşına uygun tematik oyunlar oynamadığı, otururken ellerinde el çırpma ve sirküler dönme şeklinde ritmik stereotipik davranışlar sergilediği gözlemlendi.

Gelişim öyküsünde 6 aylık iken başını dik tutabildiği, 26 aylık iken yürüdüğü, tuvalet alışkanlığının olmadığı öğrenildi. Olgunun psikometrik değerlendirmesinde Ankara Gelişim Tarama Envanteri'ne (AGTE) göre genel gelişim düzeyinin 15-16 ay arasında olduğu belirlendi. Nörolojik muayenesi, odyolojik değerlendirmesi, kranial MR ve EEG'si, genetik araştırması normal-

di. Olguya DSM-IV-TR'ye göre 'OSB ve Mental Retardasyon' tanısı konuldu. Hasta uygun özel eğitim alması konusunda yönlendirildi.

Olgu 2: 3 yaş 4 aylık DGK olan erkek hasta seslenince tepki vermeme, çevresiyle iletişim kurmama şikayetiyle kliniğimize getirildi. Yapılan psikiyatrik muayenede; kendi halinde olduğu, sallanmasının ve el hareketlerinin nadiren olduğu, çocuklarla ve oyuncaklarıyla yaşına uygun oyunlar oynamadığı, annesine diğer insanlara göre nispeten daha iyi tepki verdiği, sosyal ve duygusal tepkisinin olmadığı, öz bakım becerilerini yaşıtlarına uygun yapamadığı, özellikle ilahi müziklerine ilgisinin olduğu, ilgilendiği bir şeyi paylaşmadığı, hırçınlığının ve uyku problemi olmadığı öğrenildi. Yapılan ruhsal değerlendirilmesinde, seslenince ismine bakmadığı görüldü. Jest, mimik ya da sosyal gülümsemesi yoktu. İki gözü de görmüyordu. Eline verilen oyuncakla oynamadı. İfade edici dilinin hiç gelişmediği, yaşına uygun tematik oyunlar oynamadığı, herhangi bir stereotipik davranışının olmadığı gözlemlendi.

Gelişim öyküsünde 4 aylık iken başını dik tutabildiği, 15 aylık iken yürüdüğü, tuvalet alışkanlığının olmadığı öğrenildi. AGTE'ye göre genel gelişim düzeyinin 18-19 ay arasında olduğu belirlendi. Nörolojik muayenesi, odyolojik değerlendirmesi, kranial MR ve EEG'si ve genetik araştırması normaldi. Olguya DSM-IV-TR'ye göre 'OSB ve Mental Retardasyon' tanısı konuldu. Hasta uygun özel eğitim alması konusunda yönlendirildi.

Genel Bilgiler: Anne 32 yaşında ilköğretim mezunu ev hanımı, baba 34 yaşında lise mezunu işçi. Anne baba arasında 2. derecede akraba evliliği mevcut. Hastalarımızın 6 kardeşten 2. ve 3. sıradaki çocuklar olduğu öğrenildi. Diğer kardeşlerinde ve ailede herhangi bir psikiyatrik hastalık ve fiziksel hastalık yoktu. Hastalarımızın her ikisinin de zamanında normal vaginal yol ile doğduğu, doğum sırasında herhangi bir sıkıntısının olmadığı öğrenildi.

Tartışma

DGK'lı çocuklarda görme kaybına sekonder sosyal iletişim ve etkileşimde zorluklar yaşanmaktadır. Klinik olarak sosyal iletişimde ve etkileşimde yaşanan bu zorluklar, hem DGK hem de OSB tanısı için oldukça benzerdir. Hobson ve ark.'ı [7] görme engelli olup otistik belirtiler gösteren örneklemelerinin kontrol grubu olan otistik bozukluk tanılı çocuklarla genel olarak benzer belirtiler gösterdiğini ancak sosyal-duygusal karşılıklık açısından farklılıklar olduğunu ortaya koymuştur. Çoğu zaman bu hastalarda görülen iletişim örüntüleri ve davranış sorunları görme kaybına sekonder uyum bozukluğu kapsamında değerlendirilebilmektedir. Bu nedenle görme kaybı ve OSB'nin komorbid olduğu durumlarda OSB tanısı gecikebilmektedir. Bu açıdan bu çocuklarda OSB'yi değerlendirmek hassas bir konudur. Ancak bu durumu birbirinden ayıracak spesifik bir değerlendirme yöntemi ise yoktur. Olgularımızın iştahının normal olmasına rağmen sese tepki vermemesi, iletişim kurulamaması, kendi halinde olması, stereotipik hareketlerin olması, gülümseme gibi sosyal iletişimin olmaması, dil gelişiminin olmaması ve kardeşinde de OSB öyküsünün olması olguyu saf görme kaybindan ayırt ettiren OSB tanısı konulmasını destekleyen özelliklerdir. Ayrıca DGK'lı çocuklara yaklaşıp iletişim başlatıldıktan sonra iletişimi yürütebilmesine ve uygun duygusal yanıt verebilmesine rağmen bizim olgularımızda bu tepkiler gözlenmemiştir.

DGK'lı çocuklarda OSB belirtilerinin değerlendirildiği çalışma

sayısı literatürde kısıtlı sayıdadır [4,5]. OSB için görme kaybı ya da düşük görme seviyesinin önemli risk faktörü olduğu belirtilmektedir. Görme engelli 257 çocuk ve ergenle yapılan bir çalışmada 30 olguda OSB olduğu, OSB eş tanısı olan olgularda olmayanlara göre daha şiddetli nörokognitif bozukluk ve daha şiddetli görme bozukluğu olduğu belirlenmiştir [4]. Parr ve ark'nın [5] ağır ve çok ağır görme kaybı olan olguların değerlendirildiği araştırmalarında olguların %31'inde bir OSB tanısı olduğu bulunmuştur. Çok ağır görme kaybı olan olgularda ağır görme kaybı olan olgulara göre OSB belirtilerinin daha sık olduğu ve OSB belirtilerinin gelişimsel gerilikle ilişkili olduğu ortaya konulmuştur. Her ne kadar görme kaybı ve OSB arasında bir ilişki olduğu bildirilse de bu ilişkinin nedeni tam olarak bilinmemektedir. Ancak bu çocuklarda ortak dikkat ve sembolizasyon kısıtlılıkları ve görme kaybına bağlı sosyal deneyimlerin yetersizliği bu ilişkiyi açıklayabileceği bildirilmiştir [8].

OSB'de genetik faktörlerin ise hastalığın ortaya çıkmasının %90'ından fazlasında sorumlu olduğu görülmektedir. Bununla birlikte, yapılan birçok çalışmaya karşın az sayıda genin OSB'nin ortaya çıkmasında etkili olduğu gösterilebilmiştir. Gen-gen ve gen-çevre etkileşimlerinin hastalığın ortaya çıkmasında etkili olduğu üzerinde durulmaktadır [2,6]. İkiz çalışmalarında, tek yumurta ikizlerindeki konkordans oranlarının %36 ile %91 arasında, çift yumurta ikizlerinde %5 olduğu bildirilmiştir [1]. Kardeşler arasında ise %2-7 oranlarında eş hastalanma olduğu gösterilmiştir [2]. İkiz çalışmalarında ve kardeşlerle ilgili yapılan çalışmalarda OSB riskinin normal popülasyona göre yüksek olması hastalığın etyolojisinde kalıtsal geçişin önemli bir yeri olduğunu göstermektedir [1,2,6].

DGK'nın ve genetik yatkınlığın ayrı ayrı OSB etyolojisinde etkili olduğu bilinmesine rağmen, biz literatürde OSB'de eşzamanlı bu etyolojik faktörlerin gösterildiği vakaya rastlamadık. Bizim olgularımızda eş zamanlı hem doğuştan görme kaybının olması hem de kardeş olması etyoloji açısından önemli bir risk faktörü olarak değerlendirilmiştir. Olgularımızda, bu genetik ve fiziksel faktörlerin birbirinden bağımsız olarak ya da birbirleriyle etkileşerek hastalığın ortaya çıkmasında etkili olabileceği düşünülmüştür.

Olgularımız, komorbid OSB tanısının belirlenmesi sonrasında uygun tedavi ve rehabilitasyon açısından yönlendirilmiştir. OSB tanısının gözden kaçması durumunda yeterli ve uygun bir tedavi sağlanamayacağı açıktır. Bu nedenle, hastalarda OSB'nin saptanması hem hastaların uygun bir özel eğitim programı ve tedavi almaları hem de aileler için gerçekçi beklentiler ve hedeflerin belirlenmesi açısından büyük önem taşımaktadır.

Sonuç olarak bu olgu nedeniyle DGK'lı çocuklarda karşılaşılan sosyal iletişim ve etkileşim eksikliğinin ayrıntılı bir psikiyatrik muayenesinin yapılması, ailenin tüm üyelerinin sorgulanması gerekmektedir. Bunun yanı sıra, hastaların ayırıcı ve komorbid tanıları dikkatli yapılmalı ve uygun tedavi planı belirlenmelidir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Mukaddes NM. Otistik bozukluk. Çuhadaroglu Çetin F, editör. Çocuk ve Ergen Psikiyatrisi Temel Kitabı. Ankara: Hekimler Yayın Birliği; 2008.s.242-55.
2. Volkmar FR, Pauls D. Autism. Lancet 2003;362(9390):1133-41.

3. Ek U, Fernell E, Jacobson L. Cognitive and behavioural characteristics in blind children with bilateral optic nerve hypoplasia. Acta Paediatr 2005;94(10):1421-6.
4. Mukaddes NM, Kilincaslan A, Küçükyazici G, Sevketoğlu T, Tuncer S. Autism in visually impaired individuals. Psychiatry Clin Neurosci 2007;61(1):39-44.
5. Parr JR, Dale NJ, Shaffer LM, Salt AT. Social communication difficulties and autism spectrum disorder in young children with optic nerve hypoplasia and/or sepioptic dysplasia. Dev Med Child Neurol 2010;52(10):917-21.
6. Rutter M. Genetic studies of autism: from the 1970s into the millennium. J Abnorm Child Psychol 2000;28(1):3-14.
7. Hobson RP, Lee A, Brown R. Autism and congenital blindness. J Autism Dev Disord 1999;29(1):45-56.
8. Hobson RP, Lee A. Reversible autism among congenitally blind children? A controlled follow-up study. J Child Psychol Psychiatry 2010;51(11):1235-41.

How to cite this article:

Altun H, Findıklı E, Aslan L. Autistic Spectrum Disorder in Two Brothers with Congenital Visual Impairment: A Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 562-4.



Anatomic Repair of Right Aortic Arch, Kommerell's Diverticula and Aberrant Left Subclavian Artery Complex

Sağ Aortik Ark, Kommerell Divertikülü ve Aberran Sol Subklaviyan Arter Birlikteliğinde Anatomik Tamir

Kommerell Divertikülü / Kommerell's Diverticulum

Onur Işık, Muhammet Akyüz, Mehmet Fatih Ayık, Yüksel Atay
Ege Üniversitesi Tıp Fakültesi Kalp Damar Cerrahisi Anabilim Dalı, Konjenital Kalp Cerrahisi Bilim Dalı, İzmir, Türkiye

Özet

Üç yaşında sağ aortik ark, sol taraflı ligamentum arteriyozum ve Kommerell divertikülünden köken alan retroözefagiyal yerleşimli aberran sol subklaviyan arteri bulunan vasküler ring tanılı bir hastamızı sunduk. Hasta lokal kompresyon nedeniyle ciddi disfaji nedeniyle ameliyata alındı. Ameliyata sol posterolateral torakotomi in insizyonu ile başlandı, Kommerell divertikülü ile sol pulmoner arter arasında bulunan ligamentum arteriyozum divize edildi, Kommerell divertikülü rezeke edildi ve ardından sol subklaviyan arter sol karotis arter ile uç-yan anastomoz edilerek rekonstrükte edildi. Ameliyat sonrası sorunsuz geçen bir dönem ardından hasta antiagregan tedaviyle taburcu edildi.

Anahtar Kelimeler

Vasküler Ring; Divertikül; Aberran Subklaviyan Arter

Abstract

We report a case of 3 year old boy with diagnosis of vascular ring composed of a right sided aortic arch, left sided ligamentum arteriosum and aberrant left subclavian artery originating from a retroesophageal Kommerell's diverticulum. The boy was referred for surgery with symptoms related to local compression; severe dysphasia. At the operation incision was done through the left posterolateral thoracotomy; a ligamentum arteriosum between the Kommerell's diverticulum and the left pulmonary artery was divided, Kommerell's diverticulum resected and left subclavian artery was reconstructed in the fashion of anastomosis of the artery to the left common carotid artery. The patient did well after surgery and discharged with antiagregant therapy.

Keywords

Vascular Ring; Diverticulum; Aberrant Subclavian Artery

DOI: 10.4328/JCAM.2675

Received: 13.07.2014

Accepted: 25.07.2014

Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 565-7

Corresponding Author: Muhammet Akyüz, Ege Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kalp ve Damar Cerrahisi ABD, Bornova, 35100, İzmir, Türkiye.

T.: +90 232 4441 343 F.: +90 232 390 0002 E-Mail: drmak100@gmail.com

Giriş

Kommerell divertikülü ilk olarak B. Kommerell tarafından 1936 yılında tarif edilmiştir. Bu ilk yazıda kendisi sol aortik arkı bulunan ve sağ aberran subklavian arteri desendan aortadaki divertikülden orijin almış bir olguyu tartışmıştır. Divertikülün embriyolojik orijininin ise dorsal sağ 4. ark olduğunu savunmuştur. Aynı zamanda sağ aortik arklı hastalarda aberran sol subklavian arterin de desendan aortadaki divertikülden dallanabileceğini de belirtmiştir. Bu durumda embriyonik orijininin dorsal sol 4. ark olacağını öne sürmüştür [1].

Vasküler ringler büyük damarlar veya onların ana dallarının seyir anomalisiyle oluşan bir hastalık grubudur. Tüm konjenital kalp hastalıkları içinde %0.7 gibi küçük bölümü oluşturmaktadırlar [2]. Sağ aortik ark anomalisi ile birlikte Kommerell divertikülünden köken alan aberran sol subklavian arterin görülme sıklığı ise tüm konjenital kalp hastalıkları içerisinde % 0,042 civarındadır [2]. Biz makalemizde başarıyla tedavi edilen, bu nadir olgumuzun tanı ve tedavi sürecini tartıştık.

Olgu Sunumu

3 yaşında erkek hasta yutma güçlüğü şikayetiyle başvurduğu pediatri kliniğinde yapılan ileri inceleme sonrası vasküler ring öntanısıyla kliniğimize yönlendirildi. Öyküsünde son 6 aydır başlayan katı gıdaları yutma güçlüğü şikayeti vardı. Fizik bakışında ve kan tablosunda herhangi bir anormallik saptanmadı. Elektrokardiyografisi normal sinüs ritmi olarak değerlendirilen hastanın yapılmış ekokardiyografisinde intrakardiyak bir anomalisi yoktu. Akciğer filminde sağ aortik ark dışında bulgusu yoktu. Öncesinde yapılmış baryumlu özefagografisinde özefagusun posteriyorunda bası olduğundan olgunun bilgisayarlı tomografi (BT) ile değerlendirilmesine karar verildi. Planlanan kontrastlı BT tetkiki sonrası sağ aortik ark, retroözefagiyal yerleşimli Kommerell divertikülü ve buradan köken alan aberran sol subklavian arter tanıları kondu (Resim 2). Vasküler ring kompleksinin inkomlet yapıda olduğu, halkanın ligamentum arteriyozum ile tamamlandığı ve özefagus basısının olduğu fakat trakea basısının olmadığı görüldü. Hasta ve ailesine cerrahi tedavi önerildi; yazılı genişletilmiş hasta onam formu alındıktan sonra ameliyat planlandı. Ameliyatta sol posterolateral torakotomi insizyonu ile 4. interkostal aralıktan toraksa girildi. Sol subklavian arterin köken aldığı divertikül desendan aortadan klempaj altında divize edildi ve aortik güdük primer olarak onarıldı. Divertikülün eksizyonu sonrası ligamentum arteriyozum divize edile-

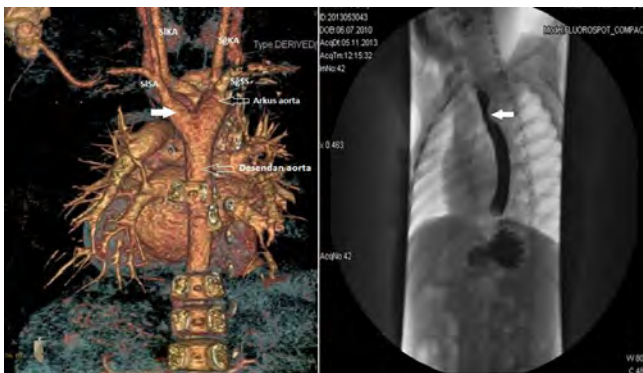
rek, arka mediastende bulunan özefagus etrafındaki tüm yapı-şıklıklar giderildi. Sol subklavian arter sol karotis arterine uç-yan anastomoz edilerek ameliyat sonlandırıldı. Hastanın izleminde şilotoraks gelişti. Şilotoraks, uygun diyet ve somatostatin analogu tedavisine cevap vererek 5 gün içerisinde tamamen geriledi ve toraks tüpü çekildi. Hasta antiagregan tedaviyle (aspirin 3 mgr/kg/gün) taburcu edildi. Üç ay sonraki kontrolde sağ ve sol kol basınç ölçümleri arasında fark olmadığı ve yutma ile ilgili şikayetlerin kaybolduğu görüldü.

Tartışma

Vasküler ringli hastalar yenidoğan döneminde kritik solunum sıkıntısından, asemptomatik olup erişkin dönemde tanı konmasına kadar geniş bir yelpazede klinik semptomlara neden olabilirler. Bu semptomlar arasında değişen şiddette katı gıdaları yutma güçlüğü, stridor, tekrarlayan solunum yolu enfeksiyonları, tekrarlayan pnömoni, kronik öksürük görülür. Özefagus bası semptomları genellikle çocuklarda katı gıdalara başlanan yaşlarda belirginleşmektedir. Katı gıdalara karşı disfaji nedeni olan aberran subklavian arter literatürde 'lusorian arter' olarak anılmaktadır. Vakamızda da semptomlar katı gıdalara başlandıktan sonra gelişmiş ve hastada refleks olarak katı gıdalardan uzaklaşma, iştahsızlık başlamış. Ayrıca çocukluk döneminde asemptomatik olup erişkin çağında divertikülün anevrizmatik hale gelmesine bağlı semptomlar da görülebilmektedir. Bu semptomlar bası veya tromboemboli nedeniyle olabilirken; divertikülün yırtılmasına bağlı ani ölüm de görülebilmektedir.

Vasküler ark anomalilerinin tanısında birçok araç bulunmakla birlikte tanıya götüren en değerli ipucu semptomları doğru değerlendiren hekimin şüphelenmesidir. Tanı araçları arasında akciğer grafisi, ekokardiyografi, baryumlu özefagografi, BT, bronkoskopi, manyetik rezonans görüntüleme (MRG) ve anjiyografi sayılabilir. Bu tanı metodlarından en sık kullanılan ekokardiyografi ve MRG'dir [3]. Geçmişte altın standart yöntemler olarak görülen baryumlu özefagografi ve anjiyografi halen yerini korumakla birlikte uygulamadaki yerini BT ve MRG gibi tetkiklere bırakmaya başlamıştır [4]. Bunun nedeni olarak ise non-invaziv olan BT ve MRG'nin üstün görüntü kalitesi, bu görüntülerin işlenerek 3 boyutlu hale getirilebilmesi, basının net değerlendirilebilmesi ve bu sayede cerrahi planı ortaya koymanın kolaylaşması gibi nedenlerle yer almaktadır. Biz kliniğimizde çocuk hastalarda hareket sorununun kötü görüntü kalitesine neden olmasından dolayı kontrastlı BT tetkikini, erişkin hastalarda ise MR ile görüntülemeyi tercih ediyoruz.

Literatürde vasküler ring anomalisinde ilk cerrahi tamir Gross tarafından yayınlanmıştır [5]. Bu dönemde cerrahi tedavi özefagusa bası yapan retroözefagiyal yerleşimli anormal arterin divizyonundan oluşmaktaydı. Arterin ligasyonu sonrası ilgili ekstremitenin dolaşımı için kollateral damarların yeterli olduğu düşünülmekteydi. Bu hastaların uzun dönem takiplerinde ekstremitelerin hipoplazik kalması, serebral dolaşımdan akım çalmanın görülmesi sonrası günümüzde tercih edilen cerrahi strateji divertikülün eksizyonu sonrası subklavian arterin karotis arterine anastomoz edilmesidir [6]. Ek olarak bu hastaların cerrahi tedavisinde Kommerell divertikülün rezeksiyonu ileri dönemlerde meydana gelebilecek komplikasyonları önlemede ve semptomların tamamen kaybolmasında önemli yer tutmaktadır. Ameliyat sırasında dikkat edilmesi gereken diğer bir önemli nokta



Resim 1. Sol taraftaki görüntüde arkus aortanın 3 boyutlu yapılandırılması çalışması sonrasında dorsalden alınan görüntüde kommerell divertikülü izlenmektedir. Sağ taraftaki görüntüde ise baryumlu özefagogram tetkikinde özefagus basısı izlenmektedir.

ise ligamentum arteriozum/patent duktus arteriozusun divizyonudur. Divizyon sonrası yapışıklıkların giderilmesi ve plevranın kapatılmamasının, semptomların tekrarlamasının önüne geçilmesinde rolü büyüktür.

Sağ aortik arkli Kommerell divertikülünden köken alan aberran sol subklavian artere cerrahi müdahalede sol posterolateral torakotomi uygun bir insizyon seçimidir. Semptomların tam olarak gerilemesinde anahtar noktalar divertikülün tam olarak rezeksiyonu, duktal ligamentin divizyonu ve yapışıklıkların giderilmesidir. Ek olarak ekstremitenin büyüme potansiyelinin korunması ve serebral dolaşımın zarar görmemesi için subklavian arterin revaskülarizasyonu da önemlidir.

Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

Kaynaklar

1. Kommerell B. Verlagerung des Oesophagus durch eine abnorm verlaufende Arteria subclavia dextra (Arteria lusoria). Fortschr Geb Rontgenstr 1936;54(1):590-5.
2. Weinberg PM. Aortic arch anomalies. J Cardiovasc Magn Reson 2006;8(4):633-43.
3. Doğan R. Vasküler Ringler-Trakeoesophageal Vasküler Kompresif Sendromlar. In: Yücel O, Genç O, editors. JCAM Torasik Konjenital Anomaliler ve Cerrahisi. Ankara: Derman Tıbbi Yayıncılık; 2011. p. 31-41.
4. Backer CL, Russell HM, Wurlitzer KC, Rastatter JC, Rigsby CK. Primary resection of Kommerell diverticulum and left subclavian artery transfer. Ann Thorac Surg 2012;94(5):1612-7.
5. Gross RE. Surgical relief for tracheal obstruction from a vascular ring. N Engl J Med 1945(1);233:586-90.
6. Shinkawa T, Greenberg SB, Jaquiss RD, Imamura M. Primary translocation of aberrant left subclavian artery for children with symptomatic vascular ring. Ann Thorac Surg 2012;93(4):1262-5.

How to cite this article:

Işık O, Akyüz M, Ayık MF, Atay Y. Anatomic Repair of Right Aortic Arch, Kommerell's Diverticula and Aberrant Left Subclavian Artery Complex. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 565-7.



Ascending to Descending Aortic Bypass: Repair Via Median Sternotomy on the Beating Heart

Asendan Desendan Aortic Bypass: Atan Kalpte Mediyen Sternotomi Yoluyla Onarım

Aortik Bypass / Aortic Bypass

Muhammet Akyuz, Onur Isik, Mehmet Fatih Ayik, Yuksel Atay
Medical Faculty of Ege University, Department of Cardiovascular Surgery, Izmir, Turkey

Özet

Rekoarktasyon nedeniyle redo aortik ark cerrahisi için başvuran 9 aylık bir olguyu sunduk. Mevcut olguda mediyen sternotomi yoluyla kardiyopulmoner bypass kullanılmadan asendan desendan aortik bypass başarıyla uygulandı. Aort koarktasyonu farklı cerrahi müdahale ve tedavi seçenekleri oldukça tatmin edici olmasına rağmen hastaların belli bir grubunda, rekoarktasyondan dolayı yeniden ameliyat gerekmektedir. Ekstra-anatomik aortik bypass ile rekoarktasyon tamiri yüksek başarı oranı ile düşük riskli bir işlem olarak kabul edilmektedir.

Anahtar Kelimeler

Aortik Koarktasyon; İnfant; Sternotomi; Extra-Anatomik Bypass

Abstract

We report the case of a 9-month-old patient presenting for redo aortic arch surgery because of recoarctation. In present case, ascending-to-descending aortic bypass via median sternotomy was performed without cardiopulmonary bypass with good result. In spite of the fact that the different surgical and intervention treatment options of aortic coarctation are quite satisfactory, a certain group of patients need reoperation because of recoarctation. The recoarctation repair of the aorta with the extra-anatomic aortic bypass is considered a low-risk procedure with high success rate.

Keywords

Aortic Coarctation; Infant; Sternotomy; Extra-Anatomic Bypass

DOI: 10.4328/JCAM.2683

Received: 17.07.2014

Accepted: 25.07.2014

Printed: 01.10.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 5): 568-70

Corresponding Author: Muhammet Akyüz, Medical Faculty of Ege University, Department of Cardiovascular Surgery, 35100, Izmir, Turkey.

T: +90 2324441343 F: +90 2323900002 E-Mail: drmak100@gmail.com

Introduction

Recurrence of stenosis is the most common complication of coarctation repair associated with major long-term morbidity, whose incidence varies, being mostly related to technical and surgical aspects or to the anatomical complexity of the coarctation [1]. Percutaneous balloon angioplasty of native or recurrent coarctation of the aorta is considered a low-risk procedure with high success rate and high recurrence rates were reported in pediatric patients [2]. But, patients failing or not amenable to balloon dilation should be managed surgically. Reoperations in the majority of cases are accomplished under cardio-pulmonary bypass [3,4]. Extra-anatomic ascending-to-descending aortic bypass however, does not need local dissection of the coarctation or aortic arch, X-clamping or cardiopulmonary bypass (CPB) and yields excellent results in infant.

Case Report

A 9-month-old patient was referred to our hospital with recoarctation. In his history, a two-days-old and weighing 2.5 kg neonate with aortic coarctation underwent extended end-to-end repair, via left lateral thoracotomy with no residual gradient and complete occlusion of ductus arteriosus. At seven months follow up, femoral pulses were not palpable and recoarctation was confirmed by echocardiography. Balloon angioplasty of recurrent coarctation was conducted and the pressure gradient decreased from 65 mmHg to 8 mmHg. At 2 months after echocardiography was performed and appreciable stenosis of the descending aorta was revealed. The angiography confirmed the recurrent coarctation of the aorta (Fig. 1).

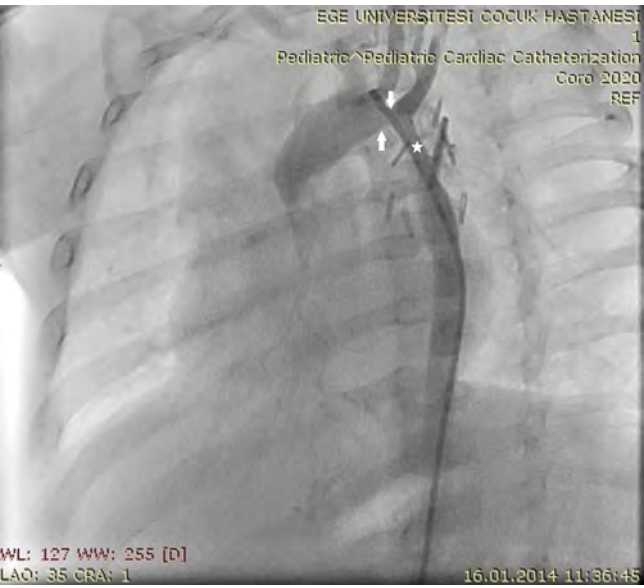


Figure 1. Preoperative angiography showing recoarctation of the isthmus aortic segment (asterisk) and stenosis of the distal aortic arch (arrows).

The surgery was performed through median sternotomy. After dissecting the ascending aorta, aortic arch and its branches, and the initial segment of the descending aorta, the presence of aortic coarctation was confirmed. The descending aorta was exposed through the posterior pericardium by gently retracting the heart cephalad and incising the pericardium longitudinally, using techniques known from off-pump CABG surgery. After systemic heparinization, the descending aorta is partially side-

clamped and an end-to-side anastomosis with 10 mm dacron graft performed with continuous 4-0 polypropylen suture (Fig. 2A). After local control for hemostasis, the graft was directed anterior to the esophagus and routed posterior to the inferior vena cava but anterior to the right inferior pulmonary vein. The graft was led around the right atrium (Fig. 2B). The graft was then cut obliquely and anastomosed to the right lateral aspect of the ascending aorta, using a side-biting clamp. The procedure was totally uneventful; it lasted 40 min and the patient was taken to the intensive care unit. He had a good postoperative evolution, being discharged from the hospital in good clinical conditions on the sixth postoperative day. At follow-up, echocardiography demonstrated patency of graft and no residual gradient.

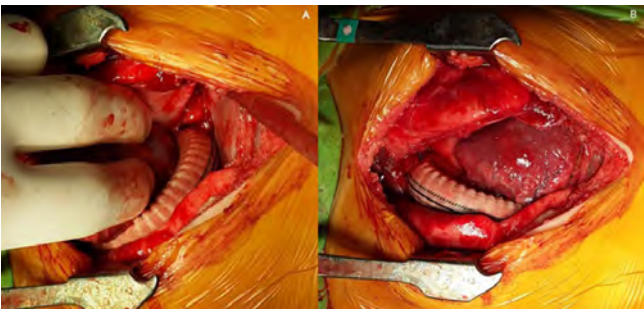


Figure 2. Exposure of the descending thoracic aorta through the posterior pericardium. The heart is retracted by the assistant as partial aortic clamping is applied to the descending aorta, and the distal anastomosis is performed (A). The Dacron graft was brought laterally to the right atrium and anteriorly to the inferior vena cava (B).

Discussion

The extra-anatomic aortic bypass was initially described by Vijayanagar et al. for recoarctations [1]. Powell et al. described a modification of this technique, which routed the graft around the right margin of the heart [5]. The prevalence of recurrent coarctation varies widely from 7 to 60% of operated coarctations and as shown by the reported data, the incidence of aortic arch hypoplasia in infants undergoing operations for aortic coarctation accounts for 70% [6].

There is a tendency in the literature to repair aortic recoarctation by using the extra-anatomic technique, because of its relative easiness and smaller dissection of adhered planes, which might lead to lesions in the aorta or its adjacent structures [7]. In this respect, extraanatomic ascending-to-descending aortic bypass, however, does not need local dissection of adhesions and the risk of injury to adjacent anatomical structures or the diseased aorta, nor cross-clamping of the diseased aortic segment, nor CPB [3,6].

The access was performed with heart mobilization and heart traction. The heart is retracted by the assistant as partial aortic clamping is applied to the descending aorta, and the distal anastomosis is performed. Despite this stabilization, the heart's natural motion and potential for hemodynamic derangement during cardiac retraction may concern for the quality of the distal anastomosis. If hemodynamic derangement occurs, conversion to partial CPB may be necessary. But our case is well exposed without any hemodynamic derangement during the surgery.

There is no single applicable technique for patients with these cases. The anatomic localization of the stenosis and the pa-

tient being in growth process are main challenges for surgery. Although the technique aids in protecting against complications related to re-coarctation repair, the lack of growth potential in the long-term is a limitation of this technique that necessitates re-operation. We conclude that recoarctation can be repaired in selected patients through median sternotomy and posterior pericardial approach minimizing morbidity and mortality due to CPB and circulatory arrest. In summary, this procedure is safe and feasible alternative technique for aortic recoarctation that affects the aortic arch or the area close to the left subclavian artery can be performed without cardiopulmonary bypass and with a short hospitalization time.

Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

References

1. Vijayanagar R, Natarajan P, Eckstein PF, Bognolo DA, Toole JC. Aortic valvular insufficiency and postductal aortic coarctation in the adult: combined surgical management through median sternotomy: a new surgical approach. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1980;79(2):266-8.
2. Hellebrand WE, Allen HD, Golinko RJ, Hagler DJ, Lutin W, Kan J. Balloon angioplasty for aortic recoarctation: results of Valvuloplasty and Angioplasty of Congenital Anomalies Registry. *Am J Cardiol* 1990;65(11):793-7.
3. Connolly HM, Schaff HV, Izhar U, Dearani JA, Warnes CA, Orszulak TA. Posterior pericardial ascending-to-descending aortic bypass: an alternative surgical approach for complex coarctation of the aorta. *Circulation* 2001;104(12):133-7.
4. Heinemann MK, Ziemer G, Wahlers T, Kohler A, Borst HG. Extraanatomic thoracic aortic bypass grafts: indications, techniques, and results. *Eur J Cardiothorac Surg* 1997;11(1):169-75.
5. Foster ED. Reoperation for aortic coarctation. *Ann Thorac Surg* 1984;38(1):81-9.
6. Powell WR, Adams PR, Cooley DA. Repair of coarctation of the aorta with intracardiac repair. *Tex Heart Inst J* 1983;10(4):409-13.
7. Magee AG, Brzezinska-Rajszys G, Qureshi SA, Rosenthal E, Zubrzycka M, Ksiazek J et al. Stent implantation for aortic coarctation and recoarctation. *Heart* 1999;82(5):600-6.

How to cite this article:

Akyuz M, Isik O, Ayik MF, Atay Y. Ascending to Descending Aortic Bypass: Repair Via Median Sternotomy on the Beating Heart. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 5): 568-70.